

Exostosis causing acute ischaemia of the lower limb

Wyrost kostna jako przyczyna ostrego niedokrwienia kończyny dolnej

Jerzy Okraszewski¹, Wojciech Błaszczuk, Marek Synder², Aleksander Górski¹

¹Department of General and Vascular Surgery, Medical University of Łódź (Klinika Chirurgii Ogólnej i Naczyniowej Uniwersytetu Medycznego w Łodzi)

²Department of Orthopaedic Surgery, Medical University of Łódź (Klinika Ortopedii Uniwersytetu Medycznego w Łodzi)

Abstract

The authors present a young patient with symptoms of acute ischemia of the right lower limb caused by a congenital exostosis of the right femur. The diagnosis and the way of treatment of this particular and rare case was described. Operative treatment including repair of the damaged artery and removal of the bony lesion was successfully performed.

Key words: exostosis of the femur, acute limb ischaemia

Streszczenie

Autorzy przedstawiają przypadek młodego mężczyzny, u którego wystąpiły objawy ostrego niedokrwienia prawej, kończyny dolnej, spowodowanego wrodzoną wyrostką kostną kości udowej. Opisano metody rozpoznania oraz sposób leczenia w tym szczególnym i rzadkim przypadku. Chorego z powodzeniem leczono operacyjnie, usuwając zmianę kostną i naprawiając uszkodzoną tętnicę.

Słowa kluczowe: wyrost kostna, ostre niedokrwienie kończyny

Introduction

The authors present a young patient with symptoms of acute ischaemia of the right lower limb caused by a congenital exostosis of the right femur.

Case description

Patient aged 22 years, an active sportsman, was admitted to our department because of resting pain in the lower right limb with sudden onset, cooling and pallor. There was no heart disease or intermittent claudication in his past medical history. He denied limb injury. According to the patient, for the last 6 weeks before acute symptoms appeared he noticed one episode of pain post exertion, localised at the medial side of the thigh, just above the knee. Physical examination revealed

Wstęp

W niniejszej pracy przedstawiono przypadek młodego mężczyzny, u którego wystąpiły objawy ostrego niedokrwienia prawej kończyny dolnej, spowodowanego wrodzoną wyrostką kostną kości udowej.

Opis przypadku

Chorego w wieku lat 22, czynnego sportowca, przyjęto do Kliniki z powodu nagłego bólu spoczynkowego prawej kończyny dolnej oraz jej oziębienia i zblednięcia. W wywiadach pacjent nie podawał chorób serca ani wcześniejszych objawów chromania przestankowego. Chory wykluczał także uraz kończyny. Twierdził, że 6 tygodni przed wystąpieniem ostrych objawów zaobserwował epizod powysiłkowych dolegliwości bólowych

Address for correspondence (Adres do korespondencji):

Dr med. Jerzy Okraszewski, Klinika Chirurgii Ogólnej i Naczyniowej UM
ul. Wólczańska 195, 90–531 Łódź

Tel./fax: (+48 42) 636 86 51, e-mail: goria@lodzmsk.pl

a lack of pulse on the popliteal artery, posterior tibial artery and dorsal foot artery. There were also abnormalities in the surface and acute sensitivity to touch within the foot, and lack of active movement in the metatarsophalangeal joints. Palpation of the adductors canal revealed the presence of a hard immobile mass, the size of tangerine. Immediate Doppler examination showed unchanged blood vessels and no blood flow at the level about 13 cm above the articular space of the knee joint. A large vessel of collateral circulation was seen in this place, together with a lesion 25×35 mm just beside the femoral vessels, which could correspond to a haematoma or thrombotic pseudoaneurysm (Figure 1).

Below the lesion there was no arterial blood flow. X-ray of the right femur was taken, revealing the presence of an exostosis on the right femur (exostosis femoris) (Figure 2).

Due to symptoms of acute ischaemia of the limb the patient was qualified for emergency procedure — control of the right femoral artery and removal of the exostosis. The operation was performed on 12.01.2005. Approach on the medial side of the thigh over the adductors canal was used. Intraoperatively, pseudoaneurysm with a thrombus was found (formed most probably due to damage of one of the arteries branching off at this level), as well as the above described exostosis (Figure 3) and no pulse on the distal part of the femoral artery.

The old thrombus was removed from the pseudoaneurysm sac and the exostosis was chiselled out. The right femoral artery was incised transversely and a Fogarty catheter placed inside the artery, peripheral to the incision site. The thrombus was removed and a very good retrograde blood flow obtained. The vessel was sewed with a continuous suture. Palpation showed pulsating blood flow peripheral to the suture. The wound was

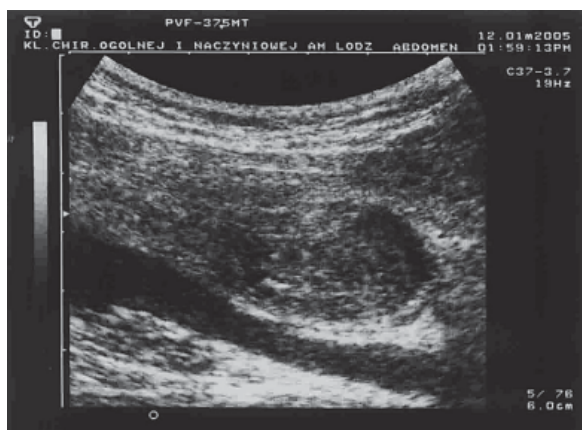


Figure 1. Ultrasound picture of the pseudo-aneurysm
Rycina 1. Ultrasonograficzny obraz tętniaka rzekomego

zlokalizowanych na przyśrodkowej powierzchni uda, tuż powyżej kolana. W badaniu przedmiotowym stwierdzono brak obecności tętna na tętnicy podkolanowej, piszczelowej tylnej oraz grzbietowej stopy. Obserwowano również zaburzenia czucia powierzchownego i głębokiego w obrębie stopy oraz zniesienie ruchów czynnych w stawach śródstopno-paliczkowych. Podczas badania palpacyjnego okolicy kanału przywodzicieli stwierdzono twardy i nieruchomy opór wielkością odpowiadający mandarynce. Doraźnie wykonano badanie USG-D, stwierdzając niezmiennione naczynia tętnicze oraz zanik przepływu krwi w tętnicy udowej na wysokości około 13 cm ponad szparę stawu kolanowego. W tym miejscu stwierdzono obecność dużego naczynia krążenia obocznego, a tuż obok naczyń udowych zmianę o wymiarach 25×35 mm, mogącą odpowiadać krwiakowi lub zakrzepniętemu tętniakowi rzekomemu (ryc. 1).

Poniżej opisywanej zmiany nie wykazano przepływu tętniczego. Następnie wykonano badanie radiologiczne uda prawego, stwierdzając obecność wyrostki kostnej udowej (exostosis femoris) (ryc. 2).

Ze względu na objawy ostrego niedokrwienia kończyny chorego zakwalifikowano do pilnego badania kontrolnego tętnicy udowej prawej oraz usunięcia wyrostki kostnej. Zabieg wykonano dnia 12 stycznia 2005 roku. Dostęp operacyjny stanowiło cięcie na przyśrodkowej powierzchni uda nad kanałem przywodzicieli. Śródoperacyjnie stwierdzono zakrzepnięty tętniak rzekomy (powstały najprawdopodobniej na skutek uszkodzenia jed-



Figure 2. Radiogram of the exostosis
Rycina 2. Zdjęcie rentgenowskie wyrostki kostnej

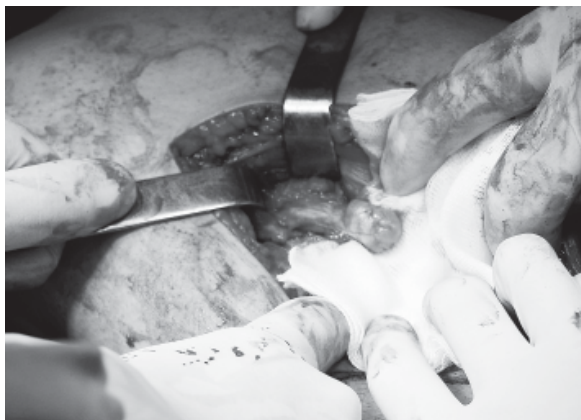


Figure 3. Intraoperative picture of the exostosis of the right femur

Rycina 3. Śródoperacyjny obraz wyrośli kostnej prawej kości udowej



Figure 4. Exostosis removed (in formalin)

Rycina 4. Wycięta wyrośl kostna

drained using the Redon method. After operation, effective blood flow with very palpable pulse on the posterior tibial artery was obtained. The removed exostosis (Figure 4) and thrombus from inside the artery were sent for histopathology.

The patient was reoperated twice within 24 hours due to massive bleeding from the removed exostosis site; the bleeding was controlled. Further postoperative course was uneventful. On the second postoperative day the drain was removed. The patient was discharged on the sixth postoperative day with the wound healed by first intention, with no signs of lower limb ischaemia.

Histopathology:

- *Thrombus partim in statu emollitionis*;
- microscopic picture may correspond to *exostosis osteocartilaginea*.

nej z odchodzących w tej okolicy tętnic), opisywaną wcześniej wyrośl (ryc. 3) oraz brak tętnienia dystalnego odcinka tętnicy udowej.

Z worka tętniaka rzekomego usunięto stare skrzepliny, wydłutowano też wyrośl kostną. Tętnicę udową prawą nacięto poprzecznie i wprowadzono do jej światła cewnik Fogarty'ego obwodowo od miejsca arteriotomii. Usunięto skrzepliny i uzyskano bardzo dobry wypływ wsteczny. Naczynie zeszyto szwem ciągłym. W kontrolnym badaniu palpacyjnym wykazano tętniacy przepływ obwodowo od miejsca szwu. Ranę zdrenowano sposobem Redona. Po operacji stwierdzono sprawny przepływ tętniczy z dobrze wyczuwalnym tętnem na tętnicy piszczelowej tylnej. Wyciętą wyrośl kostną (ryc. 4) oraz skrzeplinę ze światła tętnicy przekazano do badania histopatologicznego.

Chorego reoperowano w ciągu 24 godzin od operacji pierwotnej z powodu obfitego krwawienia z okolicy usuniętej wyrośli. Krwawienie opanowano za pomocą gąbki hemostatycznej. W dalszym przebiegu pooperyacyjnym nie stwierdzono powikłań. W 2. dobie po zabiegu usunięto dren. Chorego wypisano ze szpitala w 6. dobie po zabiegu z raną zagojoną przez rychłozrost bez cech niedokrwienia kończyny dolnej prawej.

Wynik badania histopatologicznego był następujący:

- *Thrombus partim in statu emollitionis*;
- obraz mikroskopowy mogący odpowiadać *exostosis osteo-cartilaginea*.

Dyskusja

Zacisnięcie tętnicy przez krwiak lub tętniak rzekomy jest znaną, choć rzadką przyczyną ostrego niedokrwienia kończyn [1–5]. Jedną z radszych przyczyn powstania tętniaka rzekomego tętnicy udowej lub podkolanowej są wyrośla kostne — do roku 2001 opisano około 40 przypadków ostrego niedokrwienia wywołanego tą patologią [2, 5–16]. Wyrośla kostne, często mnogie, występują głównie w okolicy stawu kolanowego, są uwarunkowane genetycznie i mogą występować rodzinie [1, 6, 10, 11, 17]. Zmiany te mogą doprowadzać do uszkodzeń zarówno tkanek miękkich, nerwów, jak i dużych naczyń, powodować zakrzepicę żył głębokich czy też niedokrwienie tętnicze [1–6]. Objawy spowodowane wyroślą kostną stwierdza się głównie w wieku dojrzewania, dlatego też większość opisywanych przypadków powikłań wyrośli kostnej dotyczy młodych mężczyzn (śr. 19–20 lat) [5, 6, 10, 11, 13, 14]. Powszechnie przyjętą metodą jest leczenie operacyjne obejmujące zarówno naprawę uszkodzonej tętnicy, jak i usunięcie zmiany kostnej [1, 4–16, 18]. W opisywanym przypadku przypuszczalny mechanizm wystąpienia objawów ostrego niedokrwienia polegał na wcześniejszym urazie

Discussion

Compression of an artery by haematoma or pseudoaneurysm is a well known, but rare, cause of acute ischaemia in the limbs [1–5]. One of the rare causes of pseudoaneurysms of the femoral artery of popliteal artery is exostosis — until 2001, about 40 cases of acute ischaemia due to exostoses had been described [2–16]. Exostoses, often multiple, are situated mainly around the knee joint, and are genetically conditioned and familial [1, 6, 10, 11, 17]. These lesions can damage soft tissues, nerves, and large vessels, lead to deep vein thrombosis or acute arterial ischaemia [1–6]. The symptoms caused by an exostosis usually manifest in adolescence, thus the majority of described complications of exostoses concern young males (mean age 19–20 years) [5, 6, 10–14]. Literature reports are consistent as to the management — operative treatment including repair of the damaged artery and removal of the bony lesion [1, 4–18]. In our case, the probable mechanism of acute ischaemia symptom formation was earlier trauma or post-exertion damage to a collateral artery branching off from the femoral artery at the level of exostosis, which must have caused direct, mechanical damage. This led to the formation of a pseudoaneurysm, with later thrombosis and compression of the artery, leading to a thrombus in the artery. Possibly an additional cause of sudden ischaemia was positioning of the limb, increasing compression of the femoral artery by the aneurysm.

References

- Glock Y, Nehme I, Delisle MB, Roux D, Fournial G (2000) Acute ischaemia of a limb as a complication of multiple hereditary exostoses. Case report and literature review. *J Cardiovasc Surg (Torino)*, 41: 105–108.
- Smits AB, vd Pavoordt HD, Moll FL (1998) Unusual arterial complications caused by an osteochondroma of the femur or tibia in young patients. *Ann Vasc Surg*, 12: 370–372.
- Khaira HS, Parnell A, Crowson MC (1995) Femoral exostosis presenting with deep vein and arterial thrombosis. *Br J Surg*, 82: 911.
- Metras D, Coulibaly AO, Calvy H, Acquaviva P, Ouattara K (1981) *J Mal Vasc*, 6: 289–291.
- Duveau D, Lenne Y, Dupon H (1978) Vasculair complications of exostosis. About an exceptional case of true femoral aneurysm. *J Chir (Paris)*, 115: 159–166.
- Cencora A, Mrowiecki T, Niedzwiedzki T, Sieczkowski A (1989) Tętniak rzekomy tętnicy podkolanowej w wyniku

lub powysiłkowym uszkodzeniu jednej z bocznic odchodzących od tętnicy udowej na wysokości wyrosli kostnej. W ten sposób prawdopodobnie doszło do powstania tętniaka rzekomego, który uległ zakrzepnięciu i spowodował ucisk tętnicy z jej następowym zakrzepem. Być może dodatkowym bodźcem do nagłego wystąpienia niedokrwienia było określone ułożenie kończyny podczas snu, powodujące zwiększony ucisk tętniaka na tętnicę udową.

uszkodzenia tętnicy wyrosłą kostną. *Pol Przegl Chir*, 61: 389–391.

- Asselineau A, Coubert P, Lahoud JC (1993) False aneurysm of the femoral artery complicating exostosis. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot*, 79: 411–414.
- Ruiz Caballero M, Martin Infante A, Benavides PH (1970) Traumatic aneurysm of the popliteal artery and exostosis of the femur. Report a case. *Arch Inst Cardiol Mex*, 40: 223–227.
- Zini F, Negri V (1984) A case of popliteal pseudoaneurysm caused by femoral exostoses, *Acta Biomed Ateneo Parmense*, 55: 43–47.
- Liberman J, Mazzucco J, Kwasnik E, Loyer R, Knight D (1994) Popliteal pseudoaneurysm as a complication of an adjacent osteochondroma. *Ann Vasc Surg*, 8: 198–203.
- Toth C, Olvaszto S, Dinya T (2001) Rare case of popliteal artery injury caused by distal femoral exostosis. Case report. *Magy Seb*, 54: 115–117.
- Kalinga MJ, Lo NN, Tan SK (1996) Popliteal artery pseudoaneurysm caused by an osteochondroma — a traditional medicine massage sequelae. *Singapore Med J*, 37: 443–445.
- Matsushita M, Nishikimi N, Sakurai T, Nimura Y (2000) Pseudoaneurysm of the popliteal artery caused by exostosis of the femur: case report and review of the literature. *J Vasc Surg*, 32: 201–204.
- Cardon A, Aillet S, Ledu J, Kerdiles Y (2001) Pseudoaneurysm of the popliteal artery by femoral exostosis in a young child. *J Cardiovasc Surg (Torino)*, 42: 241–244.
- Hasselgren PO, Eriksson B, Lukes P, Seeman T (1983) False popliteal aneurysm caused by exostosis of the femur. *J Cardiovasc Surg (Torino)*, 24: 540–542.
- Cassie GF, Dawson AS, Sheville E (1975) False aneurysm of femoral artery from cancellous exostosis of femur. Report of a case in a boy of fourteen. *J Bone Joint Surg Br*, 57: 379.
- Calafiore G, Calafiore G, Bertone C, Urgelli S, Riverq F, Maniscalco P (2001) Osteochondroma. Report of a case with atypical localization and symptomatology. *Acta Biomed Ateneo Parmense*, 72: 91–96.
- Shah PJ (1978) Aneurysm of the popliteal artery secondary to trauma from an osteochondroma of the femur: a case report and review of the literature. *Br J Surg*, 65: 786–788.