

# PERSISTÊNCIA DA ARTÉRIA TRIGEMINAL PRIMITIVA

## REVISÃO CRÍTICA DO SIGNIFICADO CLÍNICO

HÉLIO ARAUJO OLIVEIRA \* — JOSIAS DANTAS PASSOS \*\*  
MARCELO BARRETO BARBOSA \*\* — EDUARDO ALVES DO AMORIM \*\*\*

**RESUMO** — Os autores registram três casos de persistência da artéria trigeminal primitiva em que não foram encontradas evidências de relação entre a presença dessa anomalia vascular e dada síndrome clínica específica. Comentam aspectos embriológicos e discutem a possibilidade de relacionar a persistência dessa artéria primitiva com o tic doloroso e com alterações morfológicas do polígono de Willis. Fazem análise crítica da correlação feita por vários autores entre a persistência dessa artéria primitiva e outras patologias intracranianas.

**RESUMO** — Os autores registram três casos de persistência da artéria trigeminal primitiva em que não foram encontradas evidências de relação entre a presença dessa anomalia vascular e dada síndrome clínica específica. Comentam aspectos embriológicos e discutem a possibilidade de relacionar a persistência dessa artéria primitiva com o tic doloroso e com alterações morfológicas do polígono de Willis. Fazem análise crítica da correlação feita por vários autores entre a persistência dessa artéria primitiva e outras patologias intracranianas.

### **Persistent primitive trigeminal artery: a critical review**

**SUMMARY** — The authors report three cases of persistence of primitive trigeminal artery with no evidence of a relationship between its presence and any specific clinical syndrome. They discuss embryological aspects and establish the correlation between the presence of this malformation and other intracranial pathologies, such as «tic douloureux» and morphologic alteration of the circle of Willis. A critical review of the literature is also presented. **Durante o período embrionário, a anastomose do sistema carotídeo com o sistema vertebro-basilar faz-se através de três artérias: a artéria trigeminal primitiva, a artéria acústica primitiva e a artéria hipoglossa primitiva. Destas, a artéria trigeminal primitiva (ATP) é a mais proeminente, é vista quando o embrião atinge 4 mm e proporciona maior aporte sanguíneo ao mesencéfalo e rombencéfalo, desaparecendo quando o embrião atinge 14 mm 10,15,25. A persistência destas anastomoses pode ocorrer, sendo mais comum a da ATP 3-6,8,11,15,16,23. o significado clínico da persistência desta artéria primitiva é bastante controverso, no que diz respeito à associação dessa anomalia vascular com outras patologias intracranianas'. Muitos autores têm publicado estudos sobre este assunto fazendo, em alguns deles, relação causal direta entre a persistência da ATP e várias outras patologias intracranianas 6,8,9,11-14,25. o questionamento sobre esta relação causal direta tem sido constante, levando a ser aceito por vários autores que a relação é apenas uma coincidência pois, na maioria dos estudos publicados, a persistência da ATP não evidencia relação entre esta e uma síndrome clínica específica'. Constituem exceção, entretanto, certas patologias como o tic doloroso 9-14 e algumas paresias de nervos cranianos 10,12 que, pelas relações anatômicas, poderiam ser comprimidos pela artéria anômala e, também, defeitos de desenvolvimento do polígono de Willis 1,4,6,13 associados a malformações tipo aneurisma.**

Esta investigação é fruto de revisão feita em estudos angiográficos realizados durante um período de 15 anos. Constatamos a presença de três casos de persistência da ATP. Não foi encontrada qualquer relação causal direta em dois casos e, em um, estava associada a presença de malformação tipo aneurisma.

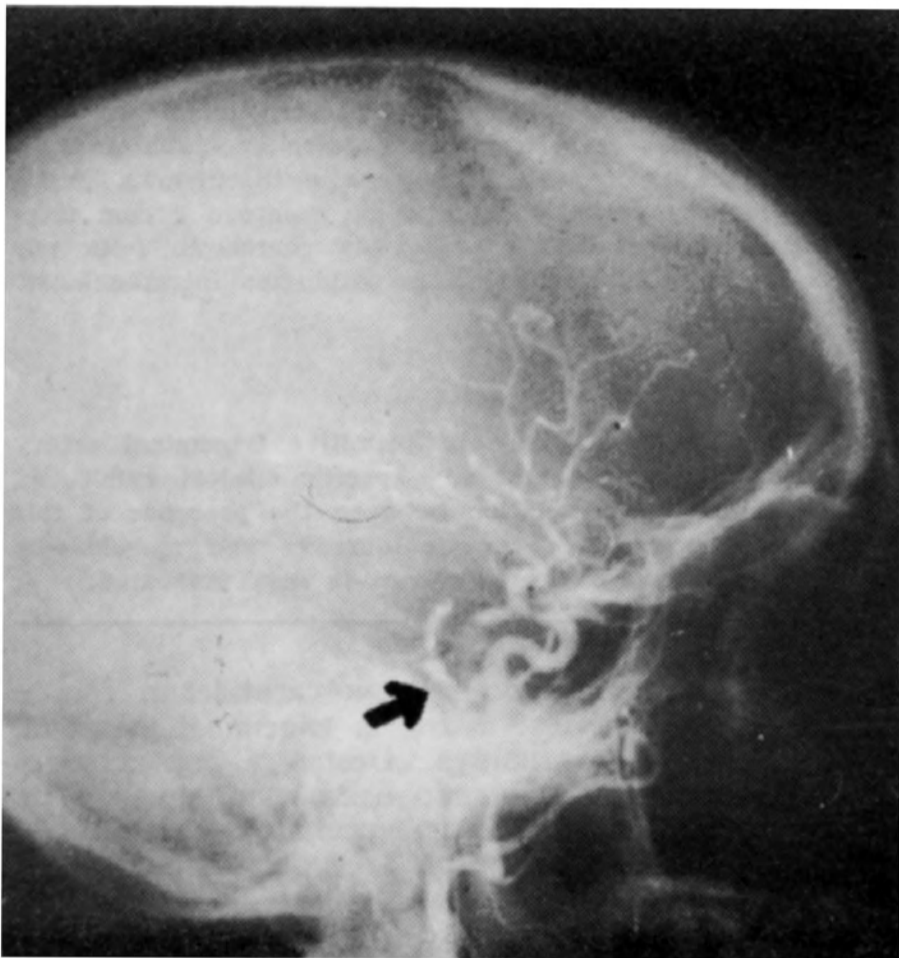
### CASUÍSTICA

**Caso 1** — SRVR, paciente com 31 anos de idade, do sexo feminino, natural do Estado do Rio de Janeiro. Internada com história de há 6 meses vir tendo crises de cefaléia acompanhadas de hipertensão arterial (sic). Um mês antes da internação sentiu subitamente

Trabalho realizado na Disciplina de Neurologia e Neurocirurgia do Departamento de Medicina Interna e Patologia, CCBS, Hospital Universitário, Universidade Federal de Sergipe: \* Professor Adjunto; \*\* Neurocirurgião do Hospital de Clínicas Augusto Leite; \*\*\* Doutorando do Curso de Medicina.

Dr. Hélio Araujo Oliveira — Rua Riachuelo 545 apto. 401 - 49020 Aracaju SE - Brasil.

fcite dor na região occipital, com irradiação para a nuca, tendo perdido os sentidos; ao recuperar-se estava ligeiramente confusa. Nesta ocasião foi medicada com sedativos. Quinze dias antes da internação, teve novo episódio de cefaléia com irradiação para a região occipital, perdeu os sentidos e notou fraqueza no membro superior direito (D). Foi internada com o diagnóstico de hemorragia subaracnóidea. Submetida a estudo angiográfico do sistema carotídeo, bilateral, foi constatada presença de malformação vascular tipo aneurisma na artéria carótida interna esquerda (E) e a persistência da artéria trigeminal primitiva à E (Fig. 1).



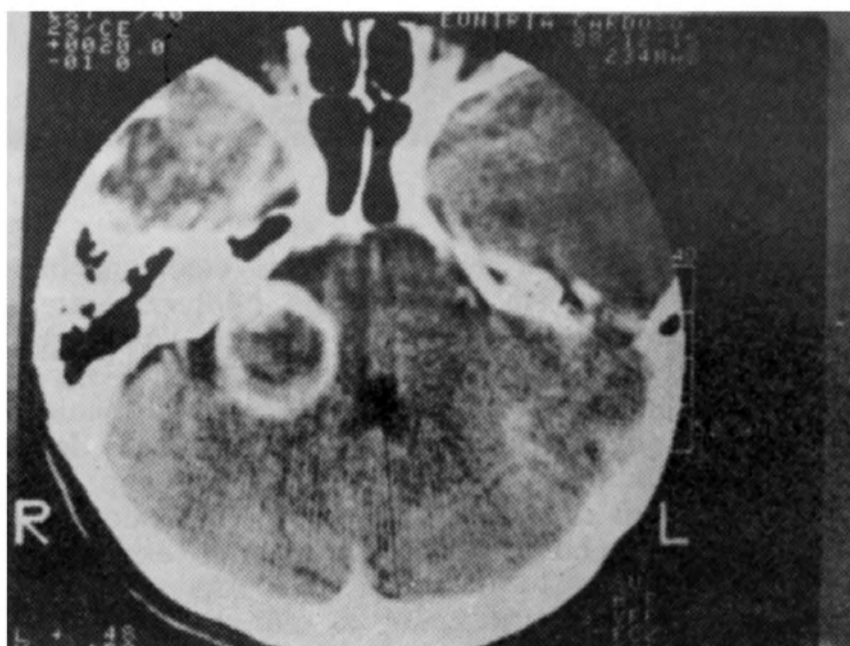
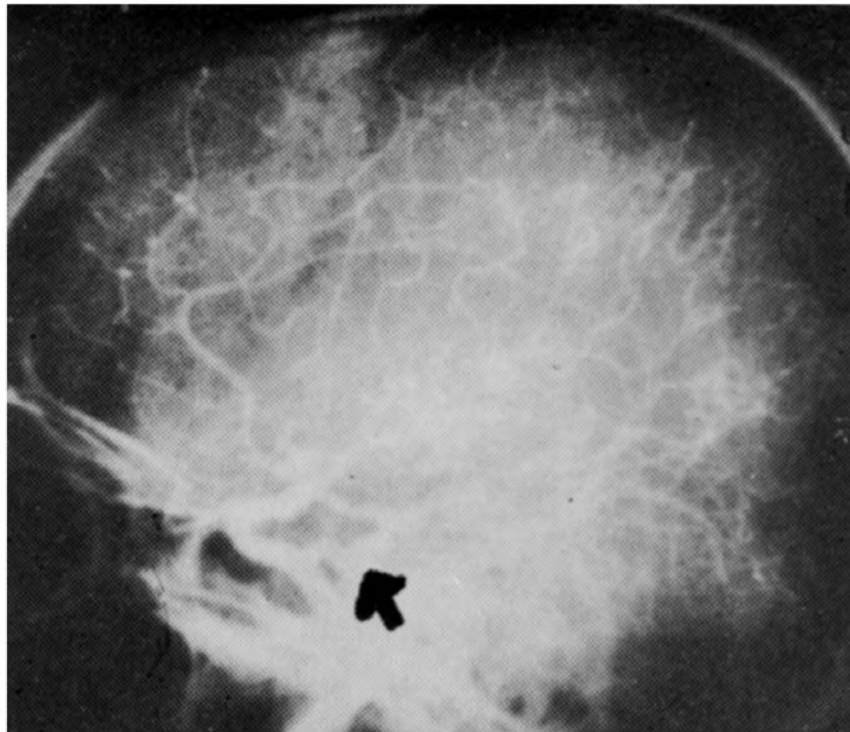
*Fig. 1 — Caso 1. Estudo angiográfico do sistema carotídeo, fase arterial, mostrando a presença da artéria trigeminal primitiva (seta) e um aneurisma da artéria carótida interna esquerda.*

Caso 2 — ERC, paciente com 52 anos de idade, do sexo feminino, natural do Estado de Sergipe. Internada com história de há um ano vir notando diminuição da acuidade auditiva D, acompanhada de cefaléia; referia ainda o aparecimento posterior de fraqueza na hemiface D. Não apresentava qualquer sinal de comprometimento da motricidade nas extremidades. Radiografia simples de crânio mostrou alargamento do conduto auditivo direito. Tomografia computadorizada do crânio (TC), mostrou a presença de tumoração de localização iníratentorial na região do ângulo ponto-cerebelar D (Fig. 2). Estudo angiográfico mostrou persistência da artéria trigeminal primitiva D (Fig. 2). A paciente foi submetida a tratamento cirúrgico, sendo retirada tumoração cujo estudo histopatológico revelou tratar-se de neurinoma do acústico.

Caso 3 — GJS, paciente com 40 anos de idade, do sexo masculino, natural do Estado de Sergipe. Foi internado no Pronto Socorro com traumatismo crânio-encefálico fechado e sinais clínicos de comprometimento do tronco cerebral. Foi submetido a estudo angiográfico de sistema carotídeo, bilateral, sendo constatada persistência da artéria trigeminal primitiva à D (Fig. 3).

#### COMENTÁRIOS

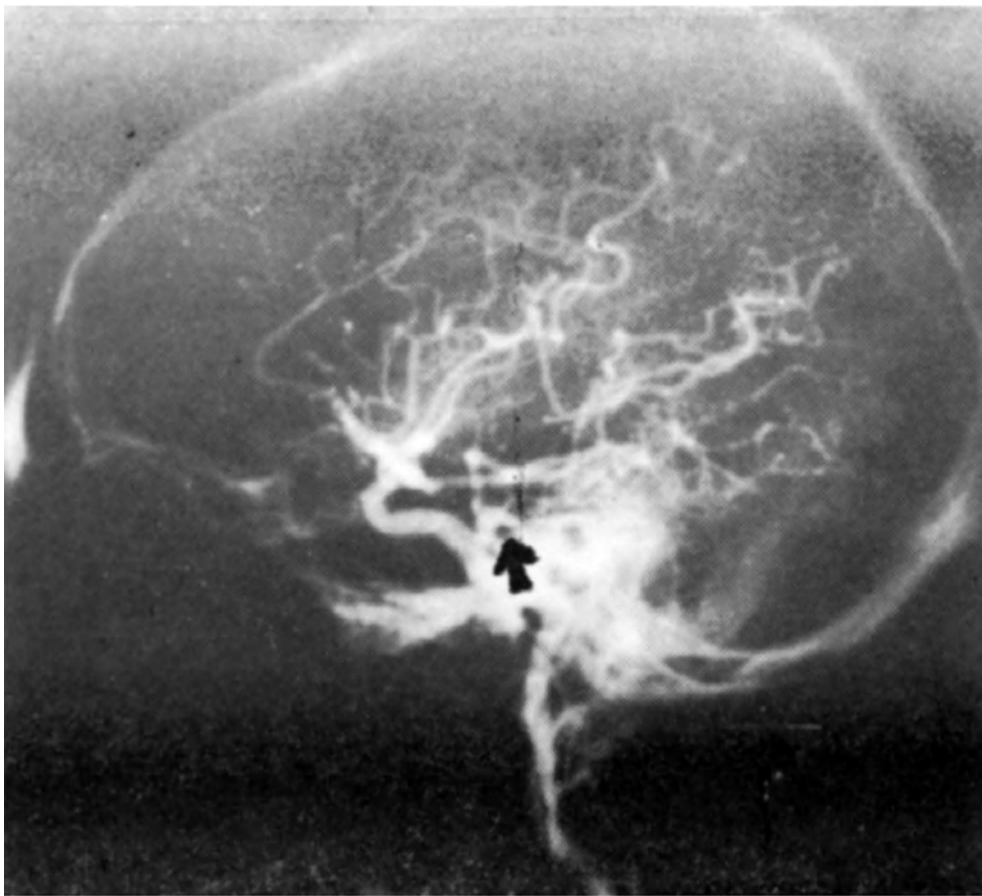
A persistência da ATP é o tipo de anastomose carótido-basilar mais comum, ocorrendo em torno de 85 a 87% **7,11**, em relação à persistência de outras artérias primitivas. Sua incidência no total geral de exames angiográficos realizados é baixa, variando entre 0,1 a 1,0% **1,4,5,7,13,14,17,18,20**. Desde 1884 esta anomalia vascular é conhecida, cabendo a Quain, segundo George et al. **6**, a primeira descrição desta anastomose embrionária em um paciente adulto. Em 1974, Wollschlaeger e Wollschlaeger **23**, em revisão da literatura, encontraram 286 casos publicados da persistência da ATP.



*Fig. 2 — Caso 2. No alto, estudo angiográfico do sistema carotídeo no direito, fase arterial, mostrando a presença da artéria trigeminal primitiva (seta). Em baixo, CT do crânio mostrando imagem de aspecto cístico, infratentorial à direita.*

Desta época para cá, poucos trabalhos foram publicados e referiam-se principalmente às variações anatômicas da ATP<sup>2,n,18</sup>.

De acordo com Padgett<sup>1</sup>, ATP é vista no embrião quando ele atinge 4 mm e comunica a artéria carótida interna com o tronco anastomótico longitudinal pré-axial que, posteriormente, dará origem à artéria basilar e, juntamente com a artéria acústica primitiva e a artéria hipoglossa primitiva, tem papel importante nos mecanismos hemodinâmicos embrionários, pois facilita a circulação sanguínea para o tronco cerebral e cerebelo, em decorrência da pobreza circulatória do tronco anastomótico longitudinal pré-axial. A existência desta anastomose carótido-basilar através das artérias embrionárias é efêmera. Quando o embrião atinge de 14 a 15 mm, ocorre a formação completa do sistema vértebro-basilar, o surgimento da artéria comunicante posterior e conseqüente desaparecimento das artérias anastomóticas embrionárias. O desaparecimento dessas artérias ocorre em dada seqüência, sendo a artéria acústica primitiva a primeira a desaparecer, seguida da artéria hipoglossa primitiva e, finalmente, da artéria trigeminal primitiva<sup>1</sup>, o desaparecimento dessas artérias embrionárias pode ser explicado pelo fato de que, nesse momento, o sistema vértebro-basilar já está completamente desenvolvido, não havendo mais necessidade da suplência sanguínea proveniente do sistema carotídeo e, também com o desenvolvimento anatômico da região, aquelas artérias irão sofrer um estiramento, além de ocorrer interposição da lâmina dorsal do esfenóide<sup>1,22</sup>.



*Fig. 3 — Caso 3. Estudo angiográfico do sistema carotídeo direito, fase arterial, mostrando a presença da artéria trigeminal primitiva (seta).*

A persistência dessas artérias embrionárias pode ocorrer na maioria das vezes unilateralmente e em casos raros bilateralmente, segundo Oertel (1922), citado por Padget<sup>15</sup>. É mais frequente a persistência da ATP<sup>23</sup>, que poderia estar relacionada a uma necessidade hemodinâmica, isto é, o vaso não regrediria desde que houvesse suprimento sanguíneo insuficiente para o sistema vértebro-basilar. Esta hipótese é contestada quando se analisam os casos já demonstrados angiograficamente. Observa-se que, em todos os casos, é descrita a presença da artéria comunicante posterior ipsolateral sem nenhuma alteração, afastando a possibilidade de uma necessidade hemodinâmica; Outra hipótese que pode explicar a persistência da ATP é de origem embriológica: a ATP nasceria da aorta em fase bem anterior e levaria sangue para um plexo vascular próximo ao gânglio de Gasser, ocorrendo anastomose carótido-basilar em fase tardia: o surgimento da ATP resultaria não de necessidade hemodinâmica do tronco cerebral e cerebelo e, sim, de necessidade metabólica da região do gânglio de Gasser<sup>1-19</sup>. Assim, não há ainda uma hipótese convincente que explique o porquê da persistência da ATP.

Até 1950, todos os casos de persistência da ATP foram descritos em autópsias ou relatos cirúrgicos; nesse ano, Sutton<sup>20</sup>, publicou o primeiro caso de persistência da ATP visualizado por estudo angiográfico. A partir dessa data é que foram relatados mais precisamente aspectos anatômicos da ATP. Esta artéria origina-se da artéria carótida interna, no ponto em que deixa o canal carotídeo para penetrar no seio cavernoso; segue-se uma porção intracavernosa que tem relação com o ramo oftálmico do nervo trigêmeo; saindo do seio cavernoso, relaciona-se com o dorso da sela, podendo perfurá-lo ou não e se dirige para trás, chegando à fossa posterior e alcançando a artéria basilar entre os pontos de origem das artérias cerebelar superior e cerebelar ântero-inferior<sup>3,18,23</sup>.

Quando ocorre persistência da ATP, algumas alterações hemodinâmicas podem surgir e, em 1955, Zaclis<sup>24</sup> comprovou tais alterações por estudo angiográfico completo realizado em paciente epilético. Verificou modificações do enchimento da artéria cerebral posterior e a direção do fluxo sanguíneo na artéria anastomótica que, por diferença de pressão, se dá no sentido da artéria carótida interna para a artéria basilar. Essas alterações já haviam sido citadas por Sutton<sup>20</sup>, por Horrison e Luttrell<sup>8</sup>, mas não demonstradas angiograficamente. Saltzman classificou a persistência da ATP em três tipos de acordo com a participação da ATP na nutrição de outros

vasos de polígono de **Willisi6,2i** — tipo I: a ATP promove a nutrição sanguínea da porção rostral da artéria basilar, da artéria cerebral superior e da artéria cerebelar superior; a artéria comunicante posterior apresenta-se geralmente com pouco fluxo; — tipo II: a ATP promove a nutrição sanguínea da artéria basilar, da artéria cerebelar superior e artéria cerebral posterior contralateral; a artéria cerebral posterior homolateral é nutrida pela artéria comunicante posterior; — tipo III: a ATP promove a nutrição sanguínea da artéria basilar e da artéria cerebelar superior; ambas as artérias cerebrais posteriores, são nutridas pelas artérias comunicantes posteriores correspondentes. Em 1972, Teal et al.<sup>22</sup> demonstraram anastomose entre a artéria carótida interna e a artéria cerebelar superior sem interposição da artéria basilar, considerando como variação da persistência da ATP, pois não se enquadrava na classificação de Saltzman. A partir desse estudo, surgiram outros com demonstrações de variações na persistência da ATP»<sup>14</sup>.**18**.

O significado clínico da persistência da ATP é bastante questionado. Em revisão da literatura encontramos a descrição desta anomalia vascular associada a várias patologias intracranianas, como: tic doloroso **9,10,14** paresias de nervos cranianos<sup>12</sup>, tumores intracranianos **1,3,7,14,18**, epilepsia **4,9,22** malformação óssea da coluna vertebral **25**, patologia vascular isquêmica **7.13**, malformação vascular <sup>13</sup>, hemorragia subaracnóidea **6.13,22**. Em 1968, Fields<sup>4</sup>, questionou pela primeira vez o significado clínico da persistência da ATP. Para este autor, o que existe é uma coincidência entre a persistência da ATP e as manifestações clínicas descritas; entretanto, está de acordo com o fato de que a persistência desse vaso embrionário pode ser acompanhada de anomalias de desenvolvimento do polígono de Willis, bem como estas anomalias podem ocorrer coincidentemente com outras, como malformações arteriovenosas ou aneurismas. Reavaliando o significado clínico da persistência da ATP, consideramos de valor significativo as relações anatômicas desta artéria com outras estruturas intracranianas, para que possam ser explicados, por exemplo, o tic doloroso e as paresias de nervos cranianos. Outro dado, que também pode ser discutido com relação ao significado clínico da persistência da ATP, é o fato de que, em alguns casos, as malformações vasculares do tipo aneurisma podem estar presentes. Em 1971, George **6** apresentou, em revisão da literatura, 232 casos publicados de persistência da ATP: 32 estavam associados a presença de aneurisma do polígono de Willis e, em 4, havia presença de aneurisma na própria artéria embrionária. Outros autores **1,8,13,19** acreditam na possibilidade de que aneurismas intracranianos se formem às custas de restos da ATi-'; o local de origem seria o ponto de obliteração da ATP, que se tornaria frágil, com possível rotura, dando origem a fístula carótido-cavernosa espontânea; os aneurismas são, portanto, a patologia que mais está relacionada à persistência da ATP. Com relação ao tic doloroso, devido à relação anatômica da ATP com o nervo trigêmeo, acreditamos que pode ser relacionado à persistência da ATP. Morita et al. **14** descreveram 8 pacientes com tic doloroso, investigados angiograficamente e explorados cirurgicamente, constatando em um caso a presença típica da ATP e, nos outros 7 casos, o que chamaram de variações da ATP. Diante desses fatos é que alguns autores **4,11,14** não unânimes em aceitar, como significado clínico da persistência da ATP, a associação que pode ocorrer entre malformações vasculares tipo aneurisma e o tic doloroso, sendo as outras associações clínicas consideradas uma coincidência. Os casos apresentados neste artigo correspondem a 0,1% de um total de 2000 estudos angiográficos realizados em um período de 15 anos, dados estes que estão de acordo com todas as taxas de incidência encontradas na revisão bibliográfica efetuada. Analisando o significado clínico da persistência da ATP nos casos apresentados, concluímos que: o primeiro caso enquadra-se no tipo I da classificação de Saltzman e vem acompanhado de patologia de desenvolvimento do polígono de Willis, fato considerado por alguns autores **1,4,6,13,19** como sendo de significado clínico, quando nos referimos a persistência da ATP; o segundo e o terceiro casos, enquadram-se no tipo II da classificação de Saltzman. Na evolução clínica do segundo caso, não encontramos qualquer dado que sugira relação causal entre a persistência da ATP e o tumor do ângulo ponto-cerebelar apresentado pela paciente, fato este que também encontramos analisando os casos publicados por alguns autores **I,3,7,ii,14,i8**. No terceiro caso, também não existe relação clínica definida entre a persistência da ATP e a patologia básica apresentada pelo paciente, edema traumático do cérebro. Diante dessas evidências, acreditamos que não existe relação causal direta entre a persistência da ATP e as patologias descritas anteriormente por vários outros autores pois, na maioria dos casos publicados, foram encontrados dados que sugerissem um significado clínico determinado pela persistência da ATP. Consideramos, entretanto, como

evidência de uma relação clínica direta os casos de tic doloroso, em decorrência das relações anatômicas do nervo trigêmeo com a ATP, fato demonstrado com clareza por Morita et al.<sup>14</sup>, como também em alguns casos de alterações motoras de nervos cranianos 10,12 pelo fato de existir também relação anatômica bem definida. Com relação às patologias de desenvolvimento do oolígono de Willis, estamos também de acordo com aqueles autores que aceitam a existência de relação causal direta entre a persistência da ATP e as malformações vasculares, principalmente os aneurismas congênitos. Com relação às demais patologias referidas na literatura, não acreditamos na relação causal direta: somos também de opinião que existe apenas uma coincidência.

evidência de uma relação clínica direta os casos de tic doloroso, em decorrência das relações anatômicas do nervo trigêmeo com a ATP, fato demonstrado com clareza por Morita et al.<sup>14</sup>, como também em alguns casos de alterações motoras de nervos cranianos **10,12** pelo fato de existir também relação anatômica bem definida. Com relação às patologias de desenvolvimento do oolígono de Willis, estamos também de acordo com aqueles autores que aceitam a existência de relação causal direta entre a persistência da ATP e as malformações vasculares, principalmente os aneurismas congênitos. Com relação às demais patologias referidas na literatura, não acreditamos na relação causal direta: somos também de opinião que existe apenas uma coincidência.

#### REFERÊNCIAS

1. Almeida GM, Longo PH. Anastomose carótido-basilar. Rev Paul Med 1965, 67:195-202.
2. Cobb SR, Hieshima GB, Mehinger CM, Grinnell VS, Pribram HW. Persistent trigeminal artery variant. Surg Neurol 1983, 19 : 263-266.
3. Djindjian R, Hurth M, Borier J, Brunet P. L'artère trigéminal primitive. Presse Méd 1965, 73 : 2903-2910.
4. Fields WS. The significance of persistent trigeminal artery. Radiology 1968, 91 : 1096-1101.
5. Gannon WE, Kaplan HA. Persistent trigeminal artery: a method for its demonstration. Radiology 1961, 77 : 839-841.
6. George AE, Lin JP, Morantz RA. Intracranial aneurysm on a persistent primitive trigeminal artery. J Neurosurg 1971, 35:601-604.
7. Hinck VC. Persistent primitive trigeminal artery. Radiology 1964, 83 : 41-45.
8. Horrison CR, Luttrele C. Persistent carotid-basilar anastomosis: three arteriographically demonstrated cases with one anatomical specimen. J Neurosurg 1953, 10 : 205-215.
9. Jackson IJ, Garza-Marcado R. Persistent carotid-basilar artery anastomosis; occasionally a possible cause of tic douloureux. Angiology 1960, 11:103-107.
10. Kemple WG, Snith DR. Trigeminal neuralgia, facial spasm, intermedius and glossopharyngeal neuralgia with persistent carotid basilar anastomosis. J Neurosurg 1960, 31: 445-451.
11. Lee KS, Kelly DL. Intrasellar persistent trigeminal artery associated with a pituitary adenoma. J Neurosurg 1989, 70:271-273,
12. Madonick MJ, Ruskin AP. Recurrent oculomotor paresis associated with a vascular anomaly: carotid-basilar anastomosis. Arch Neurol 1962, 6 : 353-357.
13. Morrison G, Hegarty WM, Brausch CC, Carteie TJ, Whith RJ. Direct surgical obliteration of a persistent trigeminal artery aneurysm. J Neurosurg 1974, 39 : 249-251.
14. Morita A, Fukushima T, Miyazaki S, Shimizu T, Atsuchi S. Tic douloureux caused by primitive trigeminal artery or its variant. J Neurosurg 1989, 70:415-419.
15. Padget DH. The development of the cranial arteries in the human embryo. Contrib Embryol 1948, 32:205.
16. Saltzman GF. Patent primitive trigeminal artery studied by cerebral angiography. Acta Radiol 1959, 51:329-336.
17. Samra K, Scoville WB, Yaghamai M. Persistent primitive trigeminal artery. J Neurosurg 1969, 30 : 622-625.
18. Siqueira MG. Anastomose direta entre as artérias carótida interna e cerebelar superior: variação da persistência da arteria trigeminal primitiva. Rev Imagem 1986, 8:155-158.
19. Sugar O. Pathological anatomy and angiography of intracranial vascular anomalies. J Neurosurg 1951, 8 : 3-22.
20. Sutton D. Anomalous carotid-basilar anastomosis. Br J Radiol 1950, 23 : 616-619.
21. Taveras JM, Wood EH. Diagnostic Neuroradiology, Volume 2. Ed 2. Baltimore: Williams & Wilkins, 1976, p 616.
22. Teal JS, Rumbough CL, Bergeron RH, Scanlan RL, Segall HD. Persistent carotid-superior cerebellar artery anastomosis: a variant of persistent trigeminal artery. Radiology 1972, 103:335-341.
23. Wollschlaeger G, Wollschlaeger PB. The circle of Willis. In Newton TH, Potts DG (eds): Radiology of the Skull and Brain, Volume 2, Book 2 (Arteries). Saint Louis: Mosby, 1974, p 1171-1201.
24. Zaclis J. Persistência da anastomose carótido-basilar: a propósito de um caso revelado pela angiografia cerebral. Arq Neuropsiquiatr (São Paulo) 1955; 9:311-356.
25. Zelnick S, Fink D, Corio C, Fung C, Neppa R, Sica M, et al. Persistent primitive trigeminal artery associated with a pituitary adenoma. J Neurosurg 1989; 70:271-273.