



## **Artículo Aceptado para su pre-publicación / Article Accepted for pre-publication**

### **Título / Title:**

Aneurisma sacular de vena yugular externa trombosada. A propósito de un caso. /  
Thrombosis of External Jugular Vein Aneurysm. A case report.

### **Autores / Authors:**

Conrado Andrés Ros, Borja Andikoetxea Agorria, Yoseba Aberasturi Plata, Borja Souto Canteli

DOI: [10.20986/recom.2020.1144/2020](https://doi.org/10.20986/recom.2020.1144/2020)

### **Instrucciones de citación para el artículo / Citation instructions for the article:**

Andrés Ros Conrado, Andikoetxea Agorria Borja, Aberasturi Plata Yoseba , Souto Canteli Borja . Aneurisma sacular de vena yugular externa trombosada. A propósito de un caso. / Thrombosis of External Jugular Vein Aneurysm. A case report.. j.maxilo 2020. doi: 10.20986/recom.2020.1144/2020.



Este es un archivo PDF de un manuscrito inédito que ha sido aceptado para su publicación en la *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*. Como un servicio a nuestros clientes estamos proporcionando esta primera versión del manuscrito en estado de prepublicación. El manuscrito será sometido a la corrección de estilo final, composición y revisión de la prueba resultante antes de que se publique en su forma final. Tenga en cuenta que durante el proceso de producción se pueden dar errores, lo que podría afectar el contenido final. El copyright y todos los derechos legales que se aplican al artículo pertenecen a la *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*.

**ANEURISMA SACULAR DE VENA YUGULAR EXTERNA TROMBOSADA. A PROPÓSITO DE UN CASO**

**THROMBOSIS OF EXTERNAL JUGULAR VEIN ANEURYSM. A CASE REPORT**

**Conrado Andrés Ros<sup>1</sup>, Borja Andikoetxea Agorria<sup>1</sup>, Yoseba Aberasturi Plata<sup>2</sup> y Borja Souto Canteli<sup>3</sup>**

*<sup>1</sup>Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Universitario Cruces. Barakaldo, España. <sup>2</sup>Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario Cruces. Barakaldo, España. <sup>3</sup>Servicio de Radiodiagnóstico, Hospital Universitario Cruces. Barakaldo, España.*

**CORRESPONDENCIA:**

Conrado Andrés Ros

[conrado.ar@hotmail.com](mailto:conrado.ar@hotmail.com)

Recibido el 15 de abril de 2020

Aceptado el 2 de mayo de 2020

**RESUMEN**

La presentación clínica de un aneurisma venoso cervical, debido a su rareza, supone un reto diagnóstico. Se presentan como masas que pueden ser fácilmente confundidas con otras entidades patológicas cervicales. La ecografía Doppler es el *gold standard* para su diagnóstico. La actitud terapéutica varía desde la resección quirúrgica hasta el *watch & wait*. Se presenta el caso clínico de una mujer de 79 años que presenta este defecto vascular. Es tratada mediante resección quirúrgica, con el postoperatorio que transcurre sin complicaciones.

**Palabras clave:** Vena yugular externa, aneurisma, trombosis.

## **ABSTRACT**

The clinical presentation of a neck venous aneurysms, implies a diagnostic challenge due to its rarity. They are presented as neck masses that can easily be confused with other clinical neck entities. Doppler ultrasound technique is the gold standard to confirm its diagnosis. Therapeutic approach varies from surgical resection to watch & wait. We report a clinical case of a 79-year-old woman who came with this vascular defect. Surgical resection was performed and postoperative period runs without complications.

**Keywords:** External jugular vein, aneurysm, thrombosis.

## **INTRODUCCIÓN**

Los aneurismas venosos fueron descritos por primera vez por Harris en 1928<sup>1</sup>. S. Kallenberger hizo la primera resección quirúrgica de una flebectasia de la vena yugular externa (VYE) en un niño de ocho años<sup>2</sup>. No existe una definición clara establecida para los aneurismas venosos, ni consenso en torno a la determinación de un umbral de tamaño. Pueden aparecer en cualquier localización, incluyendo la región cervical, torácica, visceral y en extremidades. En el cuello se presentan como masas indoloras unilaterales, blandas, no pulsátiles que aumentan con maniobras de Valsalva. El diagnóstico se basa en una correcta exploración física y se confirma mediante pruebas de imagen. En el territorio cervicofacial suelen ser asintomáticos, de evolución favorable y pese a que las complicaciones (ruptura, tromboembolismos) son infrecuentes, hay casos descritos de aneurismas saculares trombosados que originan embolismos pulmonares silentes<sup>3</sup>. Es importante distinguir esta anomalía de otras entidades patológicas cervicales. Es una entidad patológica infrecuente y, en base a su escasez de referencias en la literatura, se documenta el caso clínico de una paciente de 79 años con un aneurisma de la vena yugular externa (VYE) trombosado. Enfatizamos

su curso clínico, diagnóstico y manejo terapéutico, que dependerá de la localización.

## **CASO CLÍNICO**

Paciente de 79 años de edad con antecedentes de hipertensión arterial tratada con eprosartán y enfermedad de Parkinson en tratamiento con levodopa y benserazida. Consulta por aparición de 4 meses de evolución de una masa de 3 cm, sin variación de tamaño con maniobras de Valsalva, de consistencia blanda, no pulsátil y sin fijación a planos profundos, en el triángulo cervical anterior derecho. Refiere dolor somático de intensidad leve y continuo. No se identifican adenopatías palpables ni otras tumoraciones. La exploración física contralateral resulta normal. No antecedentes de traumatismos ni de cateterizaciones venosas centrales recientes. Se realiza ecografía doppler que identifica una lesión de 31 x 5 x 44 mm, ovoidea, bien definida predominantemente hipoecogénica (Figura 1) y angiotomografía computarizada de troncos supraaórticos (Figura 2). Tras consensuar actitud conservadora, se inicia terapia antitrombótica con acenocumarol. Tres meses después refiere nuevos episodios de dolor y se solicita angio-resonancia magnética (ARM) de troncos supraaórticos que describe una lesión de aspecto ectásico con pseudoaneurisma de la VYE derecha con trombosis en su interior y vena yugular interna (VYI) de aspecto normal. Se realiza aneurismectomía mediante incisión cervical transversa y previa ligadura proximal y distal de la VYE (Figura 3). El postoperatorio transcurre sin complicaciones y tras 6 meses de seguimiento la paciente es dada de alta. El diagnóstico histológico de la muestra evidencia una dilatación aneurismática con trombo organizado y recanalización (Figura 4).

## **DISCUSIÓN**

Un aneurisma venoso describe la dilatación sacular o fusiforme de una vena. El límite dimensional no está establecido, y autores como McDevitt y cols.<sup>4</sup> plantean que, para considerarse como aneurisma venoso, la dilatación ha de ser el doble del diámetro normal de la vena. Los aneurismas venosos cervicales son infrecuentes debido a la baja

presión venosa de la vena cava superior y pueden situarse en distintas regiones del cuello. Por orden de frecuencia se presentan en: la VVI, la VYE y, por último, en la vena yugular anterior<sup>1,5-8</sup>. Se han empleado numerosos términos para describirlo: varicocele, ectasia venosa, quiste venoso, aneurisma venoso y variz aneurismática. Los aneurismas de la VYE con trombosis en pacientes adultos son una patología infrecuente, con pocos casos descritos en la literatura.

En edad pediátrica es más frecuente en niños, es de morfología fusiforme, de localización derecha y recibe el nombre de flebectasia<sup>1,5-8</sup>. La flebectasia, aunque puede ser esporádica, suele ser de origen congénito y de localización torácica y cervical<sup>6,7</sup>. Está presente en numerosos síndromes de sobrecrecimiento como Klippel-Trenaunay, CLOVES (congenital, lipomatous, overgrowth, vascular malformations, epidermal nevi and spinal/skeletal anomalies), FAVA (Fibroadipose vascular anomaly)<sup>9</sup>. En adultos, suelen ser adquiridos (traumatismos, inflamación, tumores, etc.), de morfología sacular y de localización izquierda debido a la compresión ejercida por la aorta sobre el tronco braquiocefálico<sup>6-8</sup>. No se pudo identificar la etiología del caso expuesto.

El diagnóstico de esta entidad es básicamente clínico. Por lo general, se basa en la presencia de una masa cervical, asintomática que aumenta con los esfuerzos<sup>1,7</sup>. En el caso expuesto, la clínica varía con respecto a la presentación habitual: no se modifica con maniobras de Valsalva y genera dolor localizado continuo, derivado de la compresión de estructuras vecinas.

Dentro del abanico de estudios a realizar, la ecografía Doppler es el estudio de elección<sup>1,3,5-7</sup>. Permite diferenciar lesiones sólidas de quísticas, establecer el origen anatómico de la lesión y diferenciar lesiones vasculares de las no vasculares. A su vez, se pueden realizar estudios complementarios para completar el diagnóstico como: la tomografía computarizada (TC) en fase venosa, la angiografía cervical por tomografía computarizada con multidetector (MDCT) y la ARM<sup>1,3</sup>. Es preciso destacar que la TC en pacientes adultos debe incluir el territorio cérvico-torácico para destacar causas compresivas tumorales. El diagnóstico definitivo lo proporciona el estudio anatomopatológico de la pieza.

Hay algunos casos de aneurismas de la VYE descritos<sup>1,6,7</sup>, pero escasos con trombosis en su interior. Se analizan los casos clínicos descritos en la literatura mostrando tan solo

uno con afectación bilateral con presencia de trombosis<sup>10</sup>. Es importante realizar el diagnóstico diferencial con higroma quístico, faringocele, laringocele, neumocelo cervical y con tumores y quistes del mediastino superior<sup>1,3,5,6</sup>. Estos son fácilmente descartables con la realización de radiografías de tórax o TC.

Se reserva la resección quirúrgica cuando la tumoración sea estéticamente deformante o presente complicaciones tales como la trombosis, el sangrado espontáneo o el dolor<sup>1,3,5-8</sup>. La resección consiste en la ligadura proximal y distal de la vena y exéresis total del aneurisma, para obtener el diagnóstico histológico (Figura 4). El tratamiento conservador con seguimiento periódico se reserva a pacientes con aneurismas asintomáticos<sup>3,7,8</sup>. El pronóstico es favorable, y aunque el riesgo es bajo, pueden aparecer complicaciones tales como la ruptura, trombosis, embolismos pulmonares silentes o tromboflebitis. Por el contrario, las complicaciones de los aneurismas venosos intrabdominales y de extremidades inferiores aumentan el riesgo de complicaciones graves.

En conclusión, el aneurisma venoso de la VYE es una patología inusual, pero más excepcional todavía si presenta trombosis en su interior. A pesar de ello es una lesión a tener en cuenta al realizar el diagnóstico diferencial de cualquier masa cervical. El diagnóstico con la ayuda de la ecografía doppler es asequible y en los pacientes sintomáticos, la resección quirúrgica es la técnica de elección.

## **CONFLICTO DE INTERESES**

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

## **FINANCIACIÓN**

La presente investigación no ha recibido ayudas específicas provenientes de agencias del sector público, sector comercial o entidades sin ánimo de lucro.

## THROMBOSIS OF EXTERNAL JUGULAR VEIN ANEURYSM. A CASE REPORT

Conrado Andrés Ros<sup>1</sup>, Borja Andikoetxea Agorria<sup>1</sup>, Yoseba Aberasturi Plata<sup>2</sup> y Borja Souto Canteli<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Oral and Maxillofacial Surgery Department, Cruces University Hospital. Barakaldo, Spain. <sup>2</sup>Pathology Department Cruces University Hospital. Barakaldo, Spain. <sup>3</sup> Radiodiagnostic Department, Cruces University Hospital. Barakaldo, Spain.

### ABSTRACT

The clinical presentation of a neck venous aneurysms, implies a diagnostic challenge due to its rarity. They are presented as neck masses that can easily be confused with other clinical neck entities. Doppler ultrasound technique is the gold standard to confirm its diagnosis. Therapeutic approach varies from surgical resection to watch & wait. We report a clinical case of a 79-year-old woman who came with this vascular defect. Surgical resection was performed and postoperative period runs without complications.

**Keywords:** External jugular vein, aneurysm, thrombosis.

### INTRODUCTION

Venous aneurysms were firstly described by Harris in 1928<sup>1</sup>. S. Kallenberger, surgically performed the first external jugular vein (EJV) phlebectasia in a 8-year-old child<sup>2</sup>. There is no clear definition towards venous aneurysms, neither of a global consensus towards its measurement limits. They can appear in every location, including cervical, thoracic, visceral and in extremities. In the neck are presented as unilateral, soft, painless, non-pulsatile mass which increase with Valsalva maneuver. Diagnosis is based in a correct physical exploration and it is confirmed with non-invasive imaging. They are usually

asymptomatic in the cervico-facial territory, of favorable evolution and in spite of surgical complications (rupture, thromboembolism), they are infrequent. There are several reports that describe saccular venous aneurysms that originate silent pulmonary embolisms<sup>3</sup>. It is important to distinguish this anomaly from other neck pathological entities. It is a rare pathologic entity and based on its shortage of references, the case of an external jugular vein aneurysm (EJV) with thrombosis in a 79 year old woman is reported. We emphasize its clinic course, diagnosis and therapeutic management that will depend on its location.

## **CASE REPORT**

79-year-old patient with medical history of arterial hypertension treated with con Eprosartan and Parkinson's disease treated with Levodopa and Benserazide. Consults for a 4 month-long mass of about 3 cm, without size variation with Valsalva maneuver, soft consistency, non-pulsatile and without deep structure fixation, in the anterior neck triangle. Refers mild intensity and chronic somatic pain. No palpable lymphadenopathies or tumours are identified. Contralateral physical examination is normal. No history of trauma nor of central vein catheterization. Doppler ultrasonography which identifies a 31 x 5 x 44 mm lesion, ovoid, well defined above all hypoechoic (Figure 1) and a Computed Tomography (CT) of supra-aortic trunks is done (Figure 2). After agreeing on a conservative attitude, anticoagulation therapy with Acenocumarol is started. After 3 months, the patient refers new pain episodes and a supra-aortic trunk magnetic resonance angiography (MRA) is requested, which describes a ecstasy-like lesion with a pseudoaneurysm in the right EJV with thrombosis inside and a internal jugular vein (IJV) with normal aspect. Throughout a transverse cervical incision and previous proximal and distal EJV ligation, aneurismectomy is performed (Figure 3). Postoperative elapses without incidents and the patient is finally released after 6 month follow-up. Histopathological diagnosis shows a aneurysmal dilatation with an organized thrombus and recanalization (Figure 3).

## **DISCUSSION**



Venous aneurysm describes an isolated saccular or fusiform dilatation of a vein. Dimensional limits are not well established and authors like McDevitt et al.<sup>4</sup> pose to consider a venous aneurysm as such, dilatation has to be double the normal vein diameter. Cervical venous aneurysms are infrequent because of the low pressure that the superior vena cava territory supports and can stand in different cervical regions. In order of frequency they appear in the: IJV, EJV and lastly in the anterior jugular vein<sup>1,5-8</sup>. Numerous terms have been employed to describe it: varicocele, venous ecstasy, venous cyst, venous aneurysm and aneurysmatic venous varicosity. EJV aneurysms with thrombosis in adult patients are an infrequent pathology with few cases described in literature.

In pediatric age they are more common in boys, have a fusiform morphology, they are normally located on the right side and receive the name of phlebectasia<sup>1,5-8</sup>. Phlebectasia though sporadic as it could, can be from congenital origin and thoracic, cervical location<sup>6,7</sup>. It is present in many overgrowth syndromes such as Klippel-Trenaunay, CLOVES (*congenital, lipomatous, overgrowth, vascular malformations, epidermal nevi and spinal/skeletal anomalies*), FAVA (*Fibroadipose vascular anomaly*)<sup>9</sup>. In adults, they are normally acquired (trauma, inflammation, tumours etc.), they have saccular morphology and locate in the left side due to the compression exerted by an atherosclerotic aorta on the left innominate vein<sup>6-8</sup>. The etiology of the exposed case could not be identified.

Diagnosis of this entity is basically clinic. Generally, it is based on the presence of a cervical mass, asymptomatic, that increases in size with efforts<sup>1,7</sup>. Clinic varies with respect to the usual presentation in the presented case: there is no modification with Valsalva maneuvers and continuous pain because of surrounding structures compression is generated.

Within the range of studies to be carried out, Doppler ultrasonography is the method of choice<sup>1,3,5-7</sup>. It allows to differentiate between cystic and solid lesions and establish the origin of the lesion from adjacent structures, it can also differentiate vascular from nonvascular lesions. Complementary imaging studies can be performed to complete its diagnosis like: CT in venous phase, multidetector angiography (MDCT) and MRA<sup>1,3</sup>.

Underline that CT in adult patients should include thoracic and cervical territory to discard a compressive tumour origin. The definitive diagnosis is provided by the microscopic examination of the surgical specimen.

There are some aneurysms of the EJV described<sup>1,6,7</sup>, but a few of them with thrombosis in its interior. Case reports from literature are analyzed showing, only one, bilateral affection with the presence of thrombosis<sup>10</sup>. It is important to include EJV aneurysms in the differential diagnosis with lesions like cystic hygroma, laryngocele, faryngocele, cervical pneumocele and with cysts and tumours of the superior mediastinum<sup>1,3,5,6</sup>. These are easily discarded with the realization of thorax radiography or CT.

Surgical resection is reserved for those cases where the aneurysm has cosmetic implications or presents complications such as thrombosis, spontaneous bleeding or pain<sup>1,3,5-8</sup>. Surgical resection consists of vein proximal and distal ligation and total aneurysm excision, so that histopathological diagnosis can be obtained (Figure 4). Conservative treatment with periodical follow-up is reserved for asymptomatic aneurysms<sup>3,7,8</sup>. Prognosis is favorable and although risk is low, complications like rupture, thrombosis, silent pulmonary embolisms or thrombophlebitis can appear. On the contrary, intraabdominal and inferior extremities venous aneurysms increase the risk of severe complications.

In conclusion, EJV aneurysm is an unusual pathology, but more exceptional yet if it presents thrombosis in its interior. In spite of that, it is a lesion that should be taken into account while making the differential diagnosis of any neck soft tissue mass. Diagnosis with the help of Doppler ultrasonography is affordable and in symptomatic patients surgical resection is the choice technique.

#### **CONFLICT OF INTEREST**

The authors declare no conflict of interest.

#### **FINANCIAL AID**

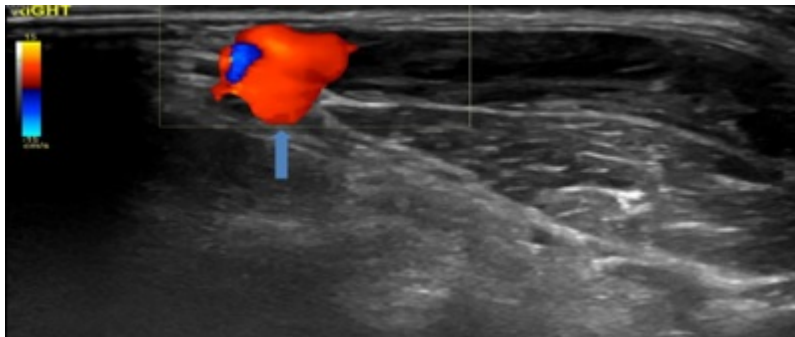
The present investigation has not received specific aid coming from public sector agencies, commercial sector or non profit entities.

## BIBLIOGRAFÍA / REFERENCES

1. Çolaklar A, Akkaya H. Saccular aneurysm of the external jugular vein: An unusual case of a neck mass. *Oman Med J.* 2019;34(5):456-9. DOI: 10.5001/omj.2019.82.
2. Sander S, Elicevik M, Ünal M, Vural Ö. Jugular phlebectasia in children: Is it rare or ignored? *J Pediatr Surg.* 1999;34(12):1829-32. DOI: 10.1016/s0022-3468(99)90323-8.
3. Parashi H, Rawekar K, Joshi M, Namdev H, Jadhao M, Bohsle K. Saccular aneurysm of external jugular vein with partial trombosis. *Asian Cardiovasc Thorac Ann.* 2018;26(8):625-7. DOI: 10.1177/0218492316686477
4. McDevitt DT, Lohr JM, Martin KD, Welling RE, Sampson MG. Bilateral popliteal vein aneurysms. *Ann Vasc Surg.* 1993;7(3):282-6. DOI: 10.1007/BF02000255.
5. Al-Shaikhi A, Kay S, Laberge J. External jugular venous aneurysm: An unusual cause of a neck mass in a young child. *J Pediatr Surg.* 2003;38(10):1557-9. DOI: 10.1016/S0022-3468(03)00526-8.
6. Battal B, Dursun E. External jugular vein aneurysm: Clinical and radiologic imaging findings. *Int J Otolaryngol.* 2011;2011:485293. DOI: 10.1155/2011/485293.
7. Mohanty D, Jain BK, Garg PK, Tandon A. External jugular venous aneurysm: A clinical curiosity. *J Nat Sc Biol Med.* 2013;4(1):223-5. DOI: 10.4103/0976-9668.107296.
8. Thakur U, Savlania A, Sahu SK, Reddy A. Image diagnosis: Classic external jugular vein aneurysm. *Perm J.* 2019;23:19.021. DOI: <https://doi.org/10.7812/TPP/19.021>.
9. Cronenwett J, Johnston K, Rutherford R. *Rutherford's Vascular Surgery.* 8th ed. Philadelphia: Saunders/Elsevier; 2010. p. 1047-8.
10. Peña Cortés R, Salvador Calvo R, Torres Hernández JA, Lozano Sánchez FS. Bilateral aneurysm of external jugular vein and sequential bilateral thrombosis. *Angiología.* 2017;69(3):196-7. DOI: 10.1016/j.angio.2016.10.008.

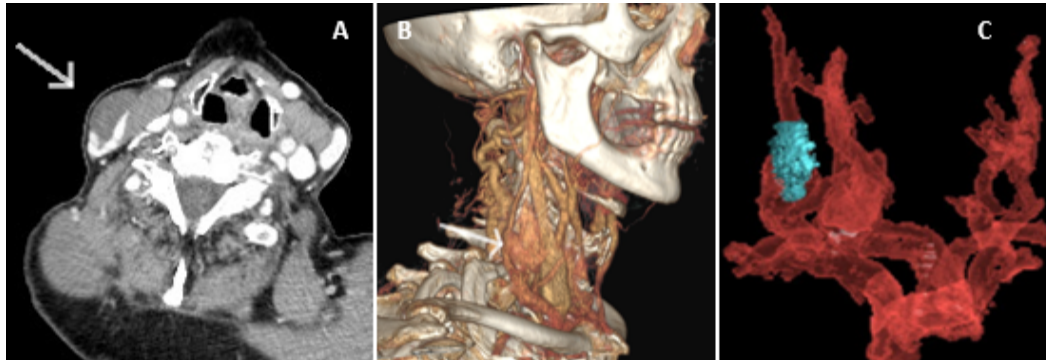
**Figura 1. Sección ecográfica sagital de región laterocervical derecha. Se identifica masa hipoecoica de 3 cm de diámetro máximo superficial a músculo esternocleidomastoideo y relación con VYE con ausencia de flujo doppler y con flujo doppler positivo en VYE (flecha).**

**Figure 1. Ultrasound image of right laterocervical region. Hypoechoic mass of 3 cm in diameter, superficial to sternocleidomastoid muscle and in relation with EJV can be appreciated without Doppler signal, while EJV has positive signal (arrow).**



**Figura 2. A-C: Angiotomografía computarizada de troncos supraaórticos mostrando imagen sacular en relación con VYE (flecha). C. Reconstrucción volumétrica.**

**Figure 2. A-C: Computed Tomography Angiography of supra-aortic trunks showing saccular image in relation with EJV (Arrow). C. Volume Rendering.**



**Figura 3. Resección de aneurisma a través de cervicotomía transversa.**

**Figure 3. Aneurysm resection through a transverse neck incision.**



**Figura 4. Dilatación aneurismática con trombo organizado y recanalización. A: Tinción: CD31 (inmunohistoquímica) (10x). B: Hematoxilina & Eosina (10x).**

**Figure 4. Aneurysmatic dilatation with organized thrombus and recanalization. A: Stain: CD31 (immunohistochemistry) (10x). B: Hematoxylin & Eosin stain (10x).**

