失神を契機に発見された左冠動脈主幹部低形成に対し 冠動脈バイパス術を施行した 1 例

熊谷 和也 金 一 上部 一彦 大沢 暁
小山 耕太郎* 高橋 信* 佐藤 陽子* 岡林 均

症例は 13 歳，女児。くり返す運動後の失神を認めたため，当センターに紹介された。経胸壁心エコー検査で心機能に異常は認めなかったものの，24 時間ホルター心電図で心拍の上昇に伴う ST 低下，およびトレッドミル負荷心筋シンチで同様の ST 低下を伴う心電図異常とともに左室前壁に虚血所見を認めた。冠動脈 CT 検査では左冠動脈主幹部低形成が認められたため，心筋虚血に伴う心原性失神と診断された。手術は非体外循環下で左内胸動脈-前下行枝の 1 枝バイパスを施行した。術後のストレスシンチでは心電図異常および心筋虚血の所見も認められず，冠動脈 CT 検査においてもグラフトの開存は良好であった。現在運動後の失神発作などは全く認められていない。学童期に失神を契機に発見された左冠動脈主幹部低形成の 1 手術例を報告した。冠動脈の形態異常に伴う心原性失神は非常に希であるが，放置すれば突然死などの原因となり，失神の鑑別診断として注意しておくべきである。また本症例のように，虚血が関与するくり返す失神に関しては積極的な冠動脈バイパス術が考慮されるべきであると考えられた。日心外会誌 37 巻 1 号：36-39 (2008)

Keywords：失神，先天性冠動脈低形成，心筋虚血，冠動脈バイパス術

Syncope on Exertion due to Congenital Hypoplasia of the Left Main Coronary Artery

Kazuya Kumagai, Hajime Kin, Kazuhiko Uwabe, Satoshi Ohsawa, Kotaro Oyama*, Shin Takahashi*, Yoko Sato* and Hitoshi Okabayashi (Department of Cardiovascular Surgery and Department of Pediatrics*, Iwate Medical University Memorial Heart Center, Morioka, Japan)
A 13-year-old girl was admitted to our hospital with a history of syncope after exercise. Neither left ventricular (LV) function nor hypertrophy was detected by transthoracic echocardiography. However, 24-h Holter electrocardiogram demonstrated ST segment depression with increasing heartbeat. Exercise ^{201}Tl myocardial scintigram also demonstrated ischemia of the anterior LV wall. Multi-slice coronary computed tomography (CT) demonstrated hypoplasia of the left main coronary artery. The syncope on exertion was ascribed to myocardial ischemia due to hypoplasia of the left main coronary artery. We performed off-pump coronary artery bypass graft (CABG) (left internal thoracic artery-left descending artery). The postoperative course was uneventful and postoperative stress ^{201}Tl myocardial scintigram demonstrated the absence of myocardial ischemia. Coronary CT demonstrated good graft patency. To date, there has not been any recurrence of syncope on exertion. We herein report a successful off-pump CABG for a patient with syncope due to hypoplasia of the left main coronary artery. Syncope on exertion due to hypoplasia of the left main coronary artery is very rare. However, certain forms of congenital coronary anomalies are associated with adverse cardiac events, including sudden cardiac death. The diagnosis, therefore, can be important and CABG is indicated, especially when there is repetitive syncope due to myocardial ischemia. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 37: 36-39 (2008)

失神は，脳血流の低下による短時間の一過性意識障害であり，見当識障害などの後遺症を残さず，また，てんかんなどの中枢性あるいはヒステリーなどの心因性の意識障害は含まないものと定義されている¹⁾。小児における冠動脈走行異常や低形成による心原性失神は非常にまれではあるが，一方，突然死の危険性も大きく，その把握は重要であ

ると考えられる。今回，学童期の失神を契機に発見された左冠動脈主幹部低形成に対し，非体外循環下冠動脈バイパス手術を行い良好な経過を認めた症例を経験したので，参考的文献を含め報告する。

症 例

症例：13 歳，女児。

主訴：失神。

現病歴：症例は陸上部に所属，2005 年 6 月，400 m 走

中に下肢の脱力が出現し、数分間の失神をはじめて認めた。その後、同様の症状を再度運動後に認めたため、当院循環器科に紹介された。経胸壁心エコー検査、ホルター心電図、トレッドミル、ティルト試験などを行ったが明らかな異常は確認できなかった。2006年4月、運動後に再度失神が認められたため、当院小児科に紹介された。頭部CT検査、脳波検査においても明らかな異常を認めなかったが、再度行った24時間ホルター心電図で心拍の上昇と一致して最大6mmのST低下が認められた。今回の症状に心筋虚血が関与していることが疑われたため、当センターに精査のため入院となった。既往歴、家族歴に特記すべきことなし。

入院時身体所見：身長157cm、体重59kg、血圧110/50mmHg、脈拍68分・整、血液一般、生化学検査で貧血、電解質異常は認められなかった。また、甲状腺機能においても明らかな異常は認められず、胸部聴診で呼吸音、心音に異常は認められなかった。

胸部レントゲン：心胸郭比43%、肺野にうっ血なし。

心電図：洞調律、脈拍86分。

心筋SPECT検査：エルゴメーター負荷により、心電図上II、III、 aV_F 、 V_{3-6} でST低下（図1）、前壁にfill inの所見を認めた。

経胸壁心エコー検査：心機能は良好（EF70%）であり、左室の拡張や心筋肥大の所見も認められなかった。冠動脈エコー検査では、左冠動脈入口部に高速血流を認め狭窄があることが予測された。

冠動脈CT検査：左冠動脈開口部の狭窄を認め、また、主幹部は低形成の所見を認め、右冠動脈のconus branchを介した側副血行路を認めた。左前下行枝はやや拡張した所見を認めるものの、石灰化や瘤状変化は認められなかった（図2）。

図1 心電図所見

（左）入院時、（右）運動負荷により脈拍の上昇に伴い、II、III、 aV_F 、 V_{3-6} でST低下を認めた。

頭頸部MRA/MRI検査：特記所見なし。

以上の所見より、左冠動脈主幹部低形成および開口部狭窄に伴う心筋虚血が本症例の失神の原因であると診断した。虚血に伴うくり返す心原性失神から冠動脈バイパス術による外科手術の適応と判断した。

手術所見：胸骨正中下部に皮膚少切開を置き、胸骨は第2肋間での逆L字切開によりアプローチし、非体外循環下で左内胸動脈（LITA）を左前下行枝（LAD）に吻合を行った。吻合後フローメーターによるLITAの血流量は45ml/min（PI：pulsatility index 2.9、DF：diastolic filling 72%）であり、良好な流速波形を認めた。

術後経過：明らかな合併症なく術後18日目に退院となった。術後検査では、エルゴメーター負荷シンチにより

図2 術前冠動脈CT検査

左冠動脈主幹部低形成および開口部狭窄を認めた（上）、左冠動脈主幹部拡大図（下）。

図3 術後冠動脈CT検査
吻合部の良好な開存を認めた。

明らかな心電図変化は認められず、前壁の fill in も認められなかった。冠動脈CT検査においても吻合部に問題を認めなかった(図3)。

考 察

本症例は、心原性失神が左冠動脈主幹部低形成による心筋虚血であった非常にまれな症例であった。失神は脳血流の低下に起因する一過性の意識消失と定義され、通常こうした原因は、1) 血管緊張もしくは血液量の異常、2) 不整脈を含む心血管系の異常、3) 脳血管系の異常に分類されている¹⁾。一方、小児における心原性失神の原因としては、構造異常などの先天性心疾患、心筋肥大、大動脈弁狭窄、急性心筋炎、そして不整脈などがある。このなかで、本症例のように冠動脈の形態学的異常が乳幼児期に臨床的に問題となることは少なく、思春期以降に運動耐用力の異常として気づかれることが多い。こうした病態の原因の一つとして、運動時の血流需要が側副血行路に依存する病態を示すことが知られている²⁾。

今回の症例は、冠動脈CT検査から左冠動脈主幹部の低形成および開口部狭窄と診断した。冠動脈の形態異常に関しては、Angelini ら³⁾ による分類が報告されているが、冠動脈の低形成は、狭窄と閉塞といった冠動脈の本質的な形態異常と同じカテゴリーに分類されている。一般的に、最も多い冠動脈走行異常は、左冠動脈と右冠動脈が右バルサルバ洞から起始し、この場合、左冠動脈主幹部が主肺動脈と大動脈の間を走行し、運動時にこの2つの拍動が大きくなることで狭窄を生じ、心筋虚血・失神などの症状を発症するとされている。そして、本症例も陸上競技を行ってい

たが、こうした走行異常を伴うアスリートでは、59%に突然死が認められ、その81%は運動中に起こった、と報告されている⁴⁾。

失神の原因に心筋虚血を伴うことは、非常にまれではある。しかしながら、Musiani ら⁵⁾ は左冠動脈主幹部閉鎖(低形成を含む) 28例の18歳以下の群においては、28例中、27例のおもな症状は、失神、発育不全、心筋梗塞であり、一方、18歳以上では、胸痛と呼吸苦がおもな症状であったと報告している。また、本症例と酷似した失神を主訴とした症状経過を示した報告として、Koh ら⁶⁾ は、左冠動脈入口部閉鎖の冠動脈形態異常を原因とした運動後の失神を認めた症例に対し、左内胸動脈を用いた冠動脈バイパス手術を施行した症例を報告している。一方、心筋虚血と失神症状との詳細なメカニズムは現在においてもはっきりわかっていない。しかしながら、本症例においては、術後の運動負荷においても明らかな心電図上のST変化、また、退院後、陸上競技を行っているが以前のような失神症状はまったく認められておらず、こうした経過から心筋虚血が失神の誘引となった可能性は明らかであると考ええる。

小児における冠動脈走行異常が原因で冠動脈バイパス手術を施行した報告は左冠動脈主幹部閉鎖に対し、9例^{5,6)} が報告されており、内胸動脈あるいは大伏在静脈を用いた冠動脈バイパス術が行われ、全例良好な成績であった。しかしながら、これらの報告は症例報告がおもなものであり、長期成績の報告は行われていない。一方、Musiani ら⁵⁾ は、心筋虚血を伴う冠動脈走行異常の小児においては、外科的冠動脈バイパス術が必要であり、長期的な開存率を考慮すると内胸動脈を用いた冠動脈バイパス術が推奨される。と述べている。また、Kitamura ら⁷⁾ はLITA-LAD吻合を施行した川崎病12例において、ITAの開存率がSVGに比し優れていること、患児の成長に伴いITAの長さや内径が増大していくことを報告している。このことから小児虚血性心疾患におけるITAを用いた冠動脈バイパス術は有用と考えられる。左冠動脈主幹部病変の場合、回旋枝へのバイパスも検討されなくてはならないが、本症例の場合、冠動脈CT検査で、右冠動脈が有意であり回旋枝が低形成であることから吻合は必要ないと判断し、また、責任病変は前下行枝と判断したため小切開による1枝吻合を行った。

若年者に認められる冠動脈走行異常における確定診断は冠動脈造影を行うこととされているが、今回の症例では、冠動脈造影に伴う心筋虚血の危険性が高いと判断し冠動脈造影を施行しなかった。一方、近年、マルチスライスCT検査による冠動脈病変や走行異常など有用な情報が得られるようになってきている⁸⁾。さらに、Jureidini ら⁹⁾ や Erez ら¹⁰⁾ は冠動脈走行異常の診断に心エコー検査が有用

であったとしている。本症例では、術前運動負荷による虚血の評価を行っているが、こうした検査による侵襲を考慮すると、今後、とくにマルチスライス CT 検査などによる非侵襲的な冠動脈評価の有用性は高まると考えられる。

結 語

学童期に失神を契機に発見された左冠動脈主幹部低形成の 1 手術例を報告した。冠動脈の形態異常にともなう心原性失神は非常にまれであるが、放置すれば突然死などの原因となり、失神の鑑別診断として注意しておくべきである。また、本症例のように、虚血が関与するくり返す失神に関しては、内胸動脈を用いた外科的バイパス術が有用であると考えられた。

文 献

- 1) 福井次矢, 黒川 清 (日本語版監修): ハリソン内科学. 第 2 版, メディカル・サイエンスインターナショナル, 東京, 2006, pp. 130-138.
- 2) Taylor, A. J., Rogan, K. M. and Virmani, R.: Sudden cardiac death associated with isolated congenital coronary artery anomalies. *J. Am. Coll. Cardiol.* **20**: 640-647, 1992.
- 3) Angelini, P., Velasco, A. J. and Flamm, S.: Coronary anomalies; Incidence, pathophysiology, and clinical relevance. *Circulation* **105**: 2449-2454, 2002.
- 4) Virmani, R., Burkert, A. P. and Farb, A.: The pathology of sudden death in athletes. *The Athlete and Heart Disease*. Williams, R. A., ed., Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, 2000, pp. 249-272.
- 5) Musiani, A., Cernigliaro, C., Sansa, M. et al.: Left main coronary artery atresia: literature review and therapeutic consideration. *Eur. J. Cardio-thorac. Surg.* **11**: 505-514, 1997.
- 6) Koh, E., Nakagawa, M., Hamaoka, K. et al.: Congenital atresia of the left coronary ostium: diagnosis and surgical treatment. *Pediatr. Cardiol.* **10**: 159-162, 1989.
- 7) Kitamura, S., Seki, T., Kawachi, K. et al.: Excellent patency and growth potential of internal mammary artery grafts in pediatric coronary artery bypass surgery; New evidence for "Live" conduit. *Circulation (Suppl. 1)* **78**: I-129-139, 1988.
- 8) Deible, A. R., Kuzo, R. S., Vohringer, M. et al.: Imaging of congenital coronary anomalies with multislice computed tomography. *Mayo Clin. Proc.* **79**: 1017-1023, 2004.
- 9) Jureidini, S. B., Marino, C. J., Shigh, G. K. et al.: Main coronary artery and coronary ostial stenosis in children: detection by transthoracic color flow and pulsed Doppler echocardiography. *J. Am. Soc. Echocardiogr.* **13**: 255-263, 2000.
- 10) Erez, E., Tam, V. K., Dublin, N. A. et al.: Anomalous coronary artery with aortic origin and course between the great artery: improved diagnosis, anatomic findings and surgical treatment. *Ann. Thorac. Surg.* **83**: 973-977, 2006.