冠動静脈瘻を伴う冠動脈瘤破裂の1手術例

神吉 佐智子 垣田 真里 禹 英 喜
佐々木 智康 大門 雅 広 勝間田 敬弘

左冠動脈回旋枝-冠静脈洞瘻に合併した直径 50 mm の冠動脈瘤の破裂により、心タンポナーデをきたした 1 例を経験した。症例は 83 歳、男性。心タンポナーデを機に冠動静脈瘻と、それに伴う冠動脈瘤を初めて指摘された。冠動脈瘤破裂に対し緊急手術を施行した。冠動脈瘤を切開し内部を観察したところ、瘤からの流出血管が冠静脈洞に合流する直前で、その内腔に 7×15 mm 大の赤色血栓を認めた。これにより流出血管がほぼ完全に閉塞しており、瘤内圧の上昇をきたした可能性があった。瘤を切除し、流入および流出血管を縫合閉鎖した。術後経過は良好であった。冠動脈瘤破裂の一因として、瘤流出路血管の血栓閉塞を考慮する必要性を示唆する症例であり、未破裂冠動脈瘤の治療指針について再考を要する。日心外会誌 44 巻 4 号：198-202 (2015)

キーワード：冠動脈瘤；冠動静脈瘻；破裂；心タンポナーデ；血栓閉塞

Ruptured Coronary Aneurysm with a Congenital Coronary Arteriovenous Fistula

Sachiko Kanki, Mari Kakita, Eiki Woo, Tomoyasu Sasaki, Masahiro Daimon and Takahiro Katsumata (Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Osaka Medical College, Osaka, Japan)

An 83-year-old man was transferred to our hospital with cardiac tamponade and suspected cardiac tumor detected by enhanced CT. Coronary angiography showed a coronary aneurysm of 50 mm ID on the left circumflex artery. An emergency surgery was performed to excise the aneurysm, and a fresh thrombus occupying the efferent artery was observed. Both the afferent and efferent vessels were closed by suture. The patient made an otherwise uneventful recovery. This case featured a fresh red thrombus formed in fistulous outflow of the coronary aneurysm that seemed a direct cause of rupture. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 44: 198-202 (2015)

Keywords : coronary aneurysm ; congenital coronary arteriovenous fistula ; cardiac tamponade

症 例

症例：83 歳、男性。

主訴：意識消失。

既往歴：高血圧、前立腺肥大症。

現病歴：高血圧で投薬加療中であった。入浴後に意識消失し救命救急センターに搬送された。心タンポナーデに伴うショック（収縮期血圧 60 mmHg）を呈しており心嚢ドレナージ術を施行された（血性心嚢液 25 ml 排出）。血行動態は改善、安定した。胸部 CT 検査で心嚢内に直径約 50 mm の腫瘤を認めたため精査・加療目的に当科搬送と

なった。

入院時現症：身長 160 cm、体重 60 kg、血圧 130/70 mmHg 左右差なし、脈拍 68 回/分 整、体温 36.8℃、心音は減弱、心雑音なし。

血液生化学検査所見：WBC 13,450/μl, RBC 326×10⁴/μl, Hb 10.7 g/dl, Ht 30.5%, Plt 18.5 万/μl, AST 122 IU/l, ALT 165 IU/l, AMY 453 IU/l, BUN 23 mg/dl, Cre 0.88 mg/dl, CRP 3.22 mg/dl, FDP 14.8 μg/ml, D-dimer 9.3 μg/ml と軽度の炎症所見、肝酵素の上昇、貧血と線溶系の亢進を認めた。

心電図：心拍数 66 回/分、洞調律。II, III, aVF, V2～V6 で水平型の ST 上昇を認めた。

胸部 X 線写真：心胸郭比 66.2%、左第 4 弓の突出を認めた。

胸部 CT：心嚢液の貯留を認めた（ドレナージ術前）。左室後側壁の房室間溝に接して最大径 50 mm の腫瘤影を認めた（Fig. 1）。

経胸壁心エコー：心嚢内に房室間溝に接して円形、内部均一、low echoic な腫瘤影を認めた。中等度の三尖弁逆流を認めた。

2014 年 9 月 23 日受付、2015 年 3 月 3 日採用

Corresponding author: Takahiro Katsumata

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Osaka Medical College, Osaka, Japan

大阪医科大学外科学講座胸部外科学教室

〒569-8686 高槻市大学町 2-7

本研究において一切の利益相反や研究資金の提供はない。

None of the authors of this manuscript has any financial or personal relationship with other people or organizations that could inappropriately influence their work.

Fig. 1

Preoperative enhanced CT revealed a mass lesion with 50 mm in diameter, of which wall was partially enhanced (arrow).

Fig. 3 Intraoperative view of the coronary aneurysm

(a)

(b)

Fig. 2 Preoperative coronary angiography revealed dilated left main trunk and coronary arterial aneurysm on the left circumflex artery

(a) Right anterior oblique view. The arrows show intact left anterior descending artery (LAD).

(b) Cranial-right anterior oblique view. The dotted line shows the outshape of the coronary arterial aneurysm.

冠動脈造影：拡張した左冠動脈主幹部と、蛇行・拡張した左冠動脈回旋枝を認め、通常径の鈍縁枝を分岐した末梢で瘤化を認めた (Fig. 2)。左冠動脈前下行枝、右冠動脈に有意狭窄はなかった。

以上より、左冠動脈回旋枝本幹の冠動脈瘤破裂の診断が確定し、同日緊急手術を施行した。

手術所見：麻酔後に行った術中経食道心エコーで冠動脈瘤とそれに連続する流出血管、冠静脈洞に連続する流入血管が描出された。冠動脈瘤は冠動静脈瘻に伴うものであることが判明した。胸骨正中切開で心膜を切開すると心嚢液の貯留はなく、心臓前面に多量の凝血塊が付着していた。上行大動脈送血、上下大静脈脱血で体外循環を確立した。

左冠動脈回旋枝にそって蛇行・拡張した冠動脈を認めた。鈍縁枝の分岐後、直径約 50 mm 大の球状の瘤化を認め、さらに冠静脈洞へ流入していた (Fig. 3)。瘤周囲の心外膜下に出血を認めたが、明らかな出血点是不明であった。流入血管を遮断し、心電図に変化のないことを確認した。大動脈遮断、完全体外循環、心停止下に瘤を切開した。瘤内部に血栓はなく、瘤壁には粥腫と微小な潰瘍が散在していた。流入血管と流出血管は瘤内で近接して開口しており、これ以外に瘤内に開口する血管は認めなかった。流入血管を結紮・閉鎖した。流出血管を切開し、末梢側に展開すると冠静脈洞の直前に 7×15 mm の赤色血栓を認め、これが塞栓子となり同部位がほぼ完全閉塞していたと考えられた。

(a)

(b)

Fig. 4 Direct view of the inside of the coronary aneurysm

(a) The efferent vessel was incompletely obstructed by a plug of red thrombus (arrow). (b) After removal of thrombus, the efferent vessel was observed to drain directly to the coronary sinus.

(Fig. 4a, b). 冠静脈洞へ流入する直前で流出血管を縫合閉鎖した。

三尖弁を観察したが、弁輪拡大はなかったため形成は行わず手術を終了した。体外循環からの離脱は容易であった。

病理所見：瘤の中膜は大部分で消失し、同部にコレステリンの沈着を認め、動脈硬化性変化をきたしていた。

術後経過：術後経過は良好で、合併症なく術後 11 日目に独歩退院した。

考 察

冠動静脈瘻は、冠動脈造影検査を受けた患者のうち 0.3~0.8% に認められる^{1,2)}。諸家の報告では起始部位は、右冠動脈 52%, 左冠動脈前下行枝 30%, 左回旋枝 18% で、回帰部位は右室 40%, 右房 25%, 肺動脈 15%, 冠静脈洞 7%, 左房 5%, 左室 3%, 上大静脈 1% であり、90% 以上が右心系に還流する^{3,4)}。これら短絡路上の瘤化病変は 26% に認めるといふ⁵⁾。現在までに冠動静脈瘻に伴う冠動脈瘤破裂の報告は、自験例以外に 23 例あり (Table 1)^{6~28)}、報告例中瘤径の最小値は 10 mm, 最大値は 50 mm で、平均値は 34.4 mm であった。年齢は 30~82 歳と幅広く、女性 20 例、男性 3 例と女性例の報告が多い。本症例は、83 歳男性の左冠動脈回旋枝起始、冠静脈洞回帰の冠動静脈瘻に合併した瘤径 50 mm の破裂例で非常に稀な症例といえる。生来、冠動静脈瘻の指摘は受けておらず、瘤破裂による心タンポナーデを契機に精査、診断に至った。前医での胸部造影 CT 検査では、右冠動脈は造影されているが、腫瘍影内部に造影効果はなかったため心臓腫瘍が疑われた。診断は冠動脈造影検査と経食道エコーで初めて確定された。造

影 CT 検査では、心タンポナーデによる低血圧と低心拍出量で瘤内への血流低下をきたしたため瘤内が造影されなかったと考えられる。病理組織所見から、加齢によると考えられる動脈硬化性変化も伴っており、これも瘤径の拡大に関与しうる。さらに術中に流出血管末梢部に赤色血栓を認め、破裂後に瘻孔内の血流が減少し血栓ができた可能性も考えられるが、新鮮血栓が同部位の不完全閉塞をきたし、瘤内圧の急激な上昇が破裂の起点となった可能性が推測された。Bauer らは破裂の機序に関し、瘤化に伴う動脈硬化と血栓形成が瘤末梢血流を閉塞し脆弱な瘤壁より破裂する、と考察報告している¹³⁾。本症例においても同様の機序が関与したと推測される。自験例を含めた瘤径 50 mm 以上の報告 5 例のすべてで瘤、あるいはその流出血管に血栓を認めた。

冠動脈血栓症の診断的観点からは、本例では瘤が回旋枝本幹の末梢に位置し、さらに瘤から起始する側枝がまったく存在しなかったために、瘤およびその流出血管が完全に血栓閉塞したとしても虚血に陥る心筋が存在せず、無症状かつ心電図異常もきたさない特殊性がある。結果的に破裂が初発症状を呈することとなった。

冠動脈瘤の治療方針の決定上、重要なのは、破裂と心筋虚血の危険評価である。冠動脈瘤破裂例の報告によると (Table 1) 瘤径が 1 cm であっても破裂例を散見し、坂尾らは、瘤径のみからは破裂の危険性の有無は判断できなとし¹⁷⁾、北條らは嚢状動脈瘤を合併した症例では症状がなくても手術的加療を考慮すべきであると考察している²⁸⁾。本症例の破裂の機序に血栓閉塞が関与するとすれば、虚血予防と同様に破裂予防としても抗血栓療法の積極的な導入は一法と考えられた。さらに、冠動脈瘤に伴う血栓形成傾

Table 1 Reported cases of coronary aneurysmal rupture

No	Authors	Year	Age	Sex	Diameter of aneurysm (mm)	Thrombus	Treatment	Clinical outcome
1	Habermann ⁶⁾	1963	52	Male	Unknown	Yes	Observation	Dead
2	Sethia ⁷⁾	1985	77	Male	Unknown	No	Surgery	Alive
3	Ishikura ⁸⁾	1992	62	Female	30	Yes	Surgery	Alive
4	Shichijo ⁹⁾	1993	65	Female	30	No	Surgery	Alive
5	Koyama ¹⁰⁾	1993	72	Female	50	Yes	Surgery	Alive
6	Yamaki ¹¹⁾	1993	63	Female	50	Yes	Surgery	Alive
7	Miyagi ¹²⁾	1995	59	Female	Unknown	No	Surgery	Alive
8	Bauer ¹³⁾	1996	82	Female	Unknown	No	Surgery	Alive
9	Wan ¹⁴⁾	1996	49	Female	Unknown	Unknown	Surgery	Alive
10	Rhu ¹⁵⁾	1997	54	Female	20	No	Surgery	Alive
11	Koshika ¹⁶⁾	1999	57	Female	40	No	Surgery	Alive
12	Sakao ¹⁷⁾	2000	59	Female	10	No	Surgery	Alive
13	Ito ¹⁸⁾	2000	58	Female	40	No	Surgery	Alive
14	Misumi ¹⁹⁾	2001	63	Female	40	No	Surgery	Alive
15	Murata ²⁰⁾	2001	70	Female	30	Yes	Surgery	Alive
16	Ozeki ²¹⁾	2002	75	Female	10	No	Surgery	Alive
17	Akashi ²²⁾	2003	69	Female	40	Yes	Surgery	Alive
18	Choh ²³⁾	2005	65	Female	30	No	Surgery	Alive
19	Gamma ²⁴⁾	2006	30	Female	Unknown	No	Surgery	Dead
20	Kimura ²⁵⁾	2006	70	Female	30	No	Surgery	Alive
21	Iwasawa ²⁶⁾	2007	76	Female	50	Yes	Surgery	Alive
22	Nakahira ²⁷⁾	2007	59	Male	Unknown	Yes	Surgery	Dead
23	Hojo ²⁸⁾	2007	66	Female	50	Yes	Surgery	Alive
24	Our case	2014	83	Male	50	Yes	Surgery	Alive

向は、瘤径の拡大に伴うずり応力の低下と、乱流に関連する²⁹⁾。川崎病における抗血栓療法では、巨大瘤に対して通常の抗血小板療法に加えワーファリンの併用を推奨している。一方で、瘤径の拡大は破裂のリスクも高めるため、抗血栓療法開始のタイミングは、両リスクを手術適応とともに検討する必要があると考えられた。

結 語

冠動静脈瘻に伴う冠動脈瘤破裂例を経験し、救命した。診断と破裂の起点に一考を要した。

文 献

- 1) Urrutia, S.C., Falaschi, G., Ott, D.A. et al.: Surgical management of 56 patients with congenital coronary artery fistulas. *Ann. Thorac. Surg.* **35**: 300-307, 1983.
- 2) Gowda, R.M., Vasavada, B.C. and Khan, I.A.: Coronary artery fistulas: clinical and therapeutic considerations. *Int. J. Cardiol.* **107**: 7-10, 2006.
- 3) McNamara, J.J. and Gross, R.E.: Congenital coronary artery fistula. *Surgery* **65**: 59-69, 1969.
- 4) Kouchoukos, N.T., Blackstone, E.H., Doty, D.B. et al.: *Coronary Arteriovenous Fistula*. Kirklin/Barratt-Boyes Cardiac Surgery. 3rd. ed., Churchill Livingstone, London, 2003, pp. 1241-1247.
- 5) Said, S.A. and el Gamal, M.I.: Coronary angiographic morphology of congenital coronary arteriovenous fistulas in adults: report of four new cases and review of angiograms of fifteen reported cases. *Cathet. Cardiovasc. Diagn.* **35**: 29-35, 1995.
- 6) Habermann, J.H., Howard, M.L. and Johnson, E.S.: Rupture of the coronary sinus with hemopericardium. A rare complication of coronary arteriovenous fistula. *Circulation* **28**: 1143-1144, 1963.
- 7) Sethia, B. and Pollock, J.C.: Coronary artery fistula following rupture of aneurysm of the sinus node artery into the right atrium. *Thorac. Cardiovasc. Surg.* **33**: 191-192, 1985.
- 8) Ishikura, Y., Odagiri, S., Shimazu, A. et al.: Surgical management of the coronary artery to pulmonary artery fistulas; a case of a large ruptured aneurysm. *Surg. Today* **22**: 176-179, 1992.
- 9) Shichijo, T., Motohiro, K. and Umemori, Y.: A case of coronary artery to pulmonary artery fistula associated with impending rupture of saccular aneurysm. *Kyobu Geka* **46**: 164-167, 1993.
- 10) Koyama, K., Suzuki, S., Fukui, K. et al.: Bilateral coronary-pulmonary artery fistulas with a large saccular aneurysm: a case of cardiac tamponade following rupture of the coronary artery aneurysm. *Kyobu Geka* **46**: 714-716, 1993.
- 11) Yamaki, F., Nakajima, M., Hirayama, T. et al.: A case report of surgical treatment of ruptured coronary artery aneurysm. *Nihon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* **41**: 2229-2233, 1993.
- 12) Miyagi, K., Kojima, K., Kuniyoshi, Y. et al.: A case of ruptured coronary arteriovenous fistula with cardiac tamponade. *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **24**: 64-67, 1995.
- 13) Bauer, H.H., Allmendinger, P.D., Flaherty, J. et al.: Congenital coronary arteriovenous fistula: spontaneous rupture and cardiac tamponade. *Ann. Thorac. Surg.* **62**: 1521-1523, 1996.
- 14) Wan, S., LeClerc, J.L., Vachieri, J.L. et al.: Cardiac

- tamponade due to spontaneous rupture of right coronary artery aneurysm. *Ann. Thorac. Surg.* **62** : 575-576, 1996.
- 15) Ryu, J.C., Choe, Y.H., Park, P.W. et al. : Cardiac tamponade due to a rupture of the coronary arteriovenous aneurysm—a case report. *J. Korean Med. Sci.* **12** : 143-145, 1997.
- 16) Koshika, M., Goto, S., Yamamoto, K. et al. : Surgical treatment of a ruptured saccular aneurysm associated with bilateral coronary arteries-pulmonary artery fistulas : a case report. *Kyobu Geka* **52** : 924-927, 1999.
- 17) Sakao, T., Tsunooka, N., Nakagawa, H. et al. : Ruptured saccular aneurysm of a coronary artery to pulmonary artery fistula associated with cardiac tamponade. *Kyobu Geka* **53** : 684-686, 2000.
- 18) Ito, M., Kodama, M., Saeki, M. et al. : Rupture of a giant saccular aneurysm of coronary arteriovenous fistulas. *Jpn. Heart J.* **41** : 659-664, 2000.
- 19) Misumi, T., Nishikawa, K., Yasudo, M. et al. : Rupture of an aneurysm of a coronary arteriovenous fistula. *Ann. Thorac. Surg.* **71** : 2026-2027, 2001.
- 20) Murata, N. and Yamamoto, N. : A case of ruptured coronary artery aneurysm associated with coronary artery fistulas. *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **30** : 305-307, 2001.
- 21) Ozeki, S., Utsunomiya, T., Kishi, T. et al. : Coronary arteriovenous fistula presenting as chronic pericardial effusion. *Circ. J.* **66** : 779-782, 2002.
- 22) Akashi, H., Tayama, E., Tayama, K. et al. : Rupture of an aneurysm resulting from a coronary artery fistula : a case report. *Circ. J.* **67** : 551-553, 2003.
- 23) Choh, S., Orime, Y., Tsukamoto, S. et al. : Successful surgical treatment of rupture of coronary arteriovenous fistula with unconsciousness after chest and back pain. *Ann. Thorac. Cardiovasc. Surg.* **11** : 190-193, 2005.
- 24) Gamma, R., Seiler, J., Moschovitis, G. et al. : Giant coronary artery fistula complicated by cardiac tamponade. *Int. J. Cardiol.* **107** : 413-414, 2006.
- 25) Kimura, S., Miyamoto, K. and Ueno, Y. : Cardiac tamponade due to spontaneous rupture of large coronary artery aneurysm. *Asian Cardiovasc. Thorac. Ann.* **14** : 422-424, 2006.
- 26) Iwasawa, Y., Kitamura, Y., Higuma, K. et al. : Cardiac tamponade due to rupture of coronary artery fistulas with a giant aneurysm containing a free floating ball thrombus : a case report. *J. Cardiol.* **50** : 71-76, 2007.
- 27) Nakahira, A., Sasaki, Y., Hirai, H. et al. : Rupture of aneurysmal circumflex coronary artery into the left atrium after ligation of its arteriovenous fistula. *Circ. J.* **71** : 1996-1998, 2007.
- 28) Hojo, H., Ozaki, M., Ogiwara, M., Yokote, Y. et al. : Ruptured saccular aneurysm associated with a coronary artery to pulmonary artery fistula. *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **36** : 96-99, 2007.
- 29) Ohkubo, T., Fukazawa, R., Ikegami, E. et al. : Reduced shear stress and disturbed flow may lead to coronary aneurysm and thrombus formations. *Pediatr. Int.* **49** : 1-7, 2007.