冠動脈左前下行枝 just proximal に形成した巨大冠動脈瘤の手術に 内胸動脈パッチ閉鎖と左前下行枝へのバイパスを行った 1 例

鈴木正人* 野村文一* 大川洋平*
安達 昭* 藤田 きしゅう* 大野 猛 三*

症例は 52 歳，男性．発作性心房細動に対するカテーテルアブレーションの治療前に行った冠動脈 CT にて，左前下行枝本幹の中枢側に冠動脈瘤と瘤流出部に高度狭窄，および冠動脈肺動脈瘻を認めた．手術は心停止下で，瘻血管の結紮，肺動脈内腔からの瘻血管流入口の閉鎖，瘤切除，左内胸動脈を用いた左前下行枝へのバイパスを行う方針としたが，術中所見にて左前下行枝分岐部から瘤までの距離が非常に短く，結紮や単純閉鎖した場合に回旋枝の狭窄を来す恐れがあると判断した．左前下行枝分岐部を内胸動脈パッチにて閉鎖し回旋枝の狭窄を回避，さらに左内胸動脈-左前下行枝バイパスを追加した．冠動脈肺動脈瘻において瘻血管に形成した巨大な瘤を治療した症例は報告されているが，本症例のように冠動脈本幹に形成した巨大冠動脈瘤に冠動脈肺動脈瘻を合併した症例は稀である．日心外会誌 45 巻 3 号：115-120 (2016)

キーワード：巨大冠動脈瘤；冠動脈肺動脈瘻；内胸動脈パッチ

Excision of a Giant Coronary Artery Aneurysm Located Immediately Proximal to the LAD and Closure of Its Stump with LITA Patch and CABG to LAD

Masato Suzuki*, Fumikazu Nomura*, Yohei Ohkawa*, Akira Adachi*, Kisyu Fujita* and Takemi Ohno* (Department of Cardiovascular Surgery, Hokkaido Ohno Hospital*, Sapporo, Japan)

A 52-year old man was referred to our hospital for atrial fibrillation ablation therapy. A multislice computed tomography study demonstrated a giant coronary artery aneurysm situated just proximal to the left anterior descending (LAD), LAD stenosis and coronary-pulmonary artery fistula. The fistula was ligated and the aneurysm was resected under cardiopulmonary bypass. The left internal thoracic artery was used as a bypass graft to the LAD as well as a patch for closure of the LAD orifice to avoid left circumflex artery stenosis. We report a rare case of giant LAD aneurysm with coronary-pulmonary artery fistula. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 45: 115-120 (2016)

Keywords : giant coronary artery aneurysm ; coronary-pulmonary artery fistula ; internal thoracic artery patch

症 例

症例：52 歳，男性．

主訴：特に認めず．

既往歴：気管支喘息に対し近医通院中である．小児期に不明熱の既往があるが川崎病の指摘はなし．

現病歴：発作性心房細動に対し，2014 年 9 月に当院循

環器内科でカテーテルアブレーションを行った．その治療前に行った CT と冠動脈造影にて，冠動脈肺動脈瘻と左前下行枝中枢側に冠動脈瘤を認め，さらに冠動脈瘤直後に高度狭窄があったため，当科紹介となった．

入院時現症：身長 167 cm，体重 65 kg，脈拍 86/分，血圧 111/64 mmHg，心雑音は聴取しなかった．

血液生化学検査：異常を認めなかった．

胸部単純 X 線写真：心胸郭比 48%，肺門部血管陰影の増強を認めず．左肺門部に辺縁整の腫瘍陰影を認めた (Fig. 1)．

心電図：洞調律，心拍数 76/分・整，異常所見なし．

心超音波所見：心機能は良好で，左室駆出率は 80% であった．心弁膜症を認めず，その他特に異常所見なし．

胸部 CT 検査：左前下行枝本幹 #6 に直径 20 mm の冠動脈瘤を認め，瘤の流出部に 90% 狭窄を認めた．右冠動脈起始部から異常血管を 1 本認め，途中，冠動脈瘤に流入する枝と，左前下行枝に連続する枝とに分岐していた．ま

2015 年 11 月 14 日受付，2016 年 1 月 13 日採用
Corresponding author : Masato Suzuki
Department of Cardiovascular Surgery, Hokkaido Ohno Hospital, Sapporo, Japan
E-mail : grfmrsz@gmail.com
*北海道大野病院心臓血管外科
〒063-0034 札幌市西区西野 4 条 1 丁目 1-30

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.

た、冠動脈瘤から肺動脈主幹部に流入する異常血管を認めた。回旋枝 #13 に直径 5 mm の冠動脈瘤を認めた (Fig. 2)。

冠動脈造影検査：胸部 CT 検査と同様の所見であった (Fig. 3)。

運動負荷心筋シンチ：前壁に虚血再分布を認めた。

以上より、左前下行枝の冠動脈瘤は、瘤径より破裂の危険性が否定できないことと、瘤流出部位の狭窄病変に対する血行再建の必要性より手術適応と判断した。冠動脈肺動脈瘻に対しても、短絡率は未計測で不明であるものの同時に治療を行う方針とした。回旋枝の冠動脈瘤は破裂の危険はないと判断し、経過観察とした。

Fig. 1

The chest radiograph of the patient showed a cystic mass (arrow).

Fig. 2

Coronary CT images showed a coronary-pulmonary artery fistula with a giant coronary aneurysm situated at the proximal LAD. PA, pulmonary artery ; LAD, left anterior descending coronary artery.

手術所見：胸骨正中切開で人工心肺下に行った。冠動脈瘤は左前下行枝 just proximal に認められ、瘤への流入血管、流出血管ともに肉眼的に同定された。流出血管は肺動脈前面に合流していた。また、右冠動脈起始部からの異常血管も肉眼的に同定された。大動脈遮断・心停止下に、右冠動脈起始部の異常血管と、瘤の流入・流出血管を結紮した。肺動脈を本幹で全周性に離断し、肺動脈内側より瘻孔を縫合閉鎖した。左前下行枝の瘤を切開し、可及的に肥厚、石灰化した瘤壁を除去した。瘤内に血栓は認めなかった。外膜は周囲との癒着が強固のため、そのまま残した。左前下行枝分岐部から瘤までの距離は非常に短く、結紮または直接縫合した場合、回旋枝の狭窄を来す可能性が高いと判断した。左前下行枝へバイパスする目的で、あらかじめ採取してあった左内胸動脈の先端部分を切除、切り開き、それをういて離断した左前下行枝の中枢部をパッチ閉鎖した (Fig. 4)。パッチを縫合した左前下行枝の中枢部位は、肉眼上は健常であった。離断した肺動脈本幹を縫合後、冠動脈バイパス (左内胸動脈-左前下行枝) を行った。人工心肺からの離脱は容易であった。人工心肺時間 214 分、大動脈遮断時間 155 分、手術時間 6 時間 32 分であった。

冠動脈瘤壁の病理組織学的所見：著しい石灰化、一部骨化を認めたが、炎症性的変化は認めなかった (Fig. 5)。外膜は瘤周囲との癒着のため切除せず、術中標本は提出できなかった。

術後経過：術翌日抜管し、特に合併症なく経過し、第 20 病日に退院した。術後の胸部 CT および冠動脈造影検査では、動脈瘤と冠動脈肺動脈瘻の消失と、バイパスの良

Fig. 3

(A) Right coronary artery angiography showed a giant coronary aneurysm of proximal LAD via fistula (arrow). (B) Left coronary artery angiography showed coronary aneurysm of LAD, stenosis at the proximal LAD and small LCx aneurysm (arrows). LCx, left circumflex artery.

Fig. 4

Arterial patch closure was performed to avoid LMT and LCx stenosis. LITA, left internal thoracic artery ; LMT, left main trunk.

好な開存を確認した (Fig. 6)。その後、当科外来に通院中であるが、経過は良好で、手術より1年1カ月を経過した時点での胸部CTにて、問題を認めていない (Fig. 7)。

考 察

冠動脈瘤は、正常な冠動脈径の1.5倍以上の径拡大と定義される¹⁾。冠動脈瘤は通常無症状であり、心エコー、CT、冠動脈造影などで偶然に発見されることが多く、その頻度は全冠動脈造影症例の0.3~4.9%と報告されている²⁾。そのうち巨大冠動脈瘤と呼ばれるものは、文献によって定義は異なるが、20~50 mmを超えたものとされ

Fig. 5

Pathological examination revealed the calcification in the wall of the LAD aneurysm (Elastica van Gieson staining ; ×2).

る^{3,4)}。巨大冠動脈瘤の頻度は0.02~0.2%と報告されている⁵⁾。部位による頻度であるが、Keyserらは、50 mmを超える巨大冠動脈瘤28例において、右冠動脈に認めたものが89%であったと報告している⁶⁾。

巨大冠動脈瘤において、臨床的に問題とされるのは、周囲への穿破、破裂、冠動脈末梢側への血栓塞栓症などである。瘤内の血栓は高頻度に認められ、末梢への血栓塞栓症は狭心症や心筋梗塞の原因となりうる。冠動脈瘤を認める症例に、心筋梗塞の頻度が増加することは、これまで複数の文献で報告されている^{7,8)}。

冠動脈瘤の成因としては川崎病、動脈硬化症、外傷 (カ

Fig. 6

Post operative coronary angiography showed no arteriovenous fistula (A and B), and no stenosis of left main trunk (B) and patent coronary artery bypass graft (C).

Fig. 7

Coronary CT images 13 month after operation showed no pseudoaneurysm of left main trunk.

テーテル治療に伴うものを含む), 先天性形成異常, 結合組織疾患, 自己免疫性疾患などがあり⁹⁾, 近年では IgG4 関連疾患に伴う冠動脈瘤の報告¹⁰⁾や, 経皮的冠動脈形成術, 特に薬剤溶出型冠動脈ステント留置に伴う冠動脈瘤の報告も認める¹¹⁾.

冠動脈瘤に対する治療についてであるが, 径 20 mm 未満の冠動脈瘤では抗凝固療法を行い経過観察することが多い¹²⁾. 上山らは自験例と文献上の破裂計 8 例を検討し, 瘤径 30 mm 以上の症例に破裂する傾向を認めるとしている¹³⁾. 一方, 関根らは, 本邦における冠動脈瘤 52 例を検討し, 破裂群 (10~50 mm, 平均 37 mm) と非破裂群 (12~67 mm, 平均 34 mm) の瘤径平均値に有意差がないことから, 瘤径のみから破裂の危険性の有無は判断できないとしている¹⁴⁾.

一方, 冠動脈瘤であるが, 病因は先天異常によるものとされ, その頻度は冠動脈造影症例の 0.1~0.8% と報告されている¹⁵⁾. 以前は稀な疾患と考えられていたが, 近年, 心エコーや冠動脈造影で偶然に発見される機会が増えている. 冠動脈瘤の起始血管は文献によって異なり^{16, 17)}, 一定の傾向はないと思われる. 瘻孔開口部位の頻度であるが, 右室 39%, 右房および冠状静脈洞 35%, 肺動脈 16%, 左心系 10% とされる¹⁸⁾. 症状として左右シャントによる心不全, シャント血流増大に伴う冠動脈の盗血減少による狭心症, 感染性心内膜炎が出現することがある.

瘻血管が瘤を形成することも稀ではないとされ, 冠動脈肺動脈瘤がある患者のうち瘤を認めるものは 15% と報告されている¹⁹⁾. 冠動脈肺動脈瘤に合併した瘤は, 病理所見上冠動脈としての構造は認めず, 先天性に発生した冠動脈

肺動脈瘤が時間経過とともに拡大し、瘤を形成する可能性が示唆されている²⁰⁾。この瘤形成の機序としては、短絡による高流量が原因とする考察や²¹⁾、炎症、瘤血管の蛇行や狭窄などによって生じる乱流、動脈硬化などが関与するといった考察などがあげられている²²⁾。

冠動脈瘤の存在のみではただちに手術の適応にはならず、今野らは、冠動脈肺動脈瘤の手術適応として、(1)短絡率30%以上、(2)心電図での虚血あるいは心負荷の所見、(3)肺高血圧症の進行、(4)うっ血性心不全の進行、(5)瘤形成を認め破裂の危険がある、(6)細菌性心内膜炎の既往、(7)心雑音が著しく就職そのほか社会的に不利となる場合などとしている²³⁾。

これまで文献的に報告されている巨大冠動脈瘤を伴う冠動脈肺動脈瘤の症例の多くは、冠動脈から起始する短絡血管に、冠動脈瘤を形成するもので、これらを冠動脈瘤とは区別し、瘻血管瘤と呼ぶ文献もある²⁴⁾。本症例のように、冠動脈本幹に形成した巨大冠動脈瘤に冠動脈肺動脈瘤を合併した報告例は、過去の文献でほとんど認めず、非常に稀であると思われる。

本症例は小児期に不明熱のエピソードを認め、また、冠動脈瘤の流出部の内腔狭窄所見は、川崎病の冠動脈後遺症における特徴的な所見の1つであることから、冠動脈瘤の形成について、まず川崎病との関連の可能性を検討すべきであると思われる。文献的には、川崎病の成人期に後炎症性動脈病変はリモデリングを継続し、動脈硬化症が加わる可能性が指摘されており、川崎病の冠動脈後遺症における中等大以上の残存動脈瘤の病理形態像の1つとして、瘤壁に沿った広範な石灰化を認めることがあげられている²⁵⁾。本症例における瘤組織の病理診断は、外膜は提出できなかったため不十分であるが、炎症細胞浸潤は認めず、ほとんどが石灰化であった。今回、病理所見が得られた範囲において、本症例は川崎病における病理所見と矛盾しないものであった。一方、成人で冠動脈瘤のある症例の多くは、川崎病既往が不明である。川崎病の既往症例で冠動脈瘤のある場合は、川崎病後遺症と診断できるが、本症例のように既往が不明である場合は、確定診断は困難とされる²⁵⁾。

本症例は川崎病以外の冠動脈瘤を来しうるとされる先天性形成異常、結合組織疾患、自己免疫疾患、外傷の既往などを認めず、冠動脈瘤の成因としては動脈硬化症による可能性が高いと思われるが、血液検査や既往歴、生活歴などにおいて動脈硬化の危険因子は認めない。また、冠動脈瘤と冠動脈肺動脈瘤との因果関係についてであるが、本症例の短絡血管と冠動脈瘤は連結しており、冠動脈瘤の形成機序として、瘻血管瘤を来す病態と類似したものである可能性は考えられる。しかし回旋枝に存在した5mmの冠動脈瘤は瘻血管との連結は認めなかった。文献的に同様の症例

報告も認めず、明らかな因果関係は不明である。

治療については、近年は冠動脈瘤に対する経皮的冠動脈形成術や、冠動脈肺動脈瘤に対するコイル塞栓術などのカテーテル治療の報告もされているが⁹⁾、本症例においては、冠動脈瘤に対するカテーテル治療の長期予後が不明である点、年齢と耐術可能である点とを考慮し、開心術による治療を選択した。

冠動脈瘤への手術方法は、瘤へ流入する血管、瘤から流出する血管をそれぞれ結紮して冠動脈瘤を切除し、必要に応じてバイパスを追加する手技が標準であり、場合によっては、体外循環を使用せずに手術可能とされる¹²⁾。その他、瘤切除後の血行再建方法としては、冠動脈断端を端々吻合した報告²⁶⁾や、大伏在静脈を用いて *in situ* に冠動脈-冠動脈バイパスを行った報告²⁷⁾も認める。冠動脈瘤を有する場合は、一般的に体外循環の使用が必要であり、特に肺動脈に流出する場合の手術方法には人工心肺下に肺動脈を切開して肺動脈内側から瘻孔を閉鎖する方法が用いられる。また短絡率が高い冠動脈瘤を有する場合、順行性心筋保護を注入する際に、短絡により十分な心筋保護が得られないことが懸念される場合は、逆行性心筋保護を用いるか、大動脈遮断の前に異常血管を結紮しておくなどの処置が必要と思われる。

本症例は、左冠動脈 just proximal に生じた瘤の手術であり、血行動態と十分な視野の確保の点から、瘻の有無にかかわらず人工心肺を使用することが第一選択と考えた。また、より良好な視野確保の目的で、肺動脈本幹は部分的ではなく全周性に離断した。また、左前下行枝分岐部から冠動脈瘤までの距離が非常に短いことが術中に判明し、結紮や直接閉鎖した場合、左冠動脈主幹部の末梢側から回旋枝入口部にかけて狭窄を来す恐れがあった。これに対し、バイパスのために採取してあった左内胸動脈先端の一部を用い、左前下行枝中枢側をパッチ閉鎖し、回旋枝の狭窄を回避した。急遽のグラフト採取と回旋枝へのバイパスに要す時間を考慮すると、この方法によって手術時間の短縮に寄与できたと思われる。この方法を用いる状況は、左前下行枝や回旋枝の中枢側に形成した冠動脈瘤の処置を行う場合に限られるであろうが、手術手技の1つとして有用であると考ええる。左冠動脈主幹部近傍は、上行大動脈の圧に等しいストレスがかかっており、パッチの材質として、より耐圧性が高いものを選択することが望ましいとする考えもあろうかと思われるが、現在、手術より1年1カ月が経過し、特に問題を認めていない。ただし、さらなる遠隔期にパッチ閉鎖した部位がどうなるかは明らかでなく、今後とも注意深い観察が必要である。

結 語

非常に稀と思われる，冠動脈本幹に形成した巨大冠動脈瘤に冠動脈肺動脈瘻を合併した症例を経験した。瘤は左前下行枝 just proximal に形成しており，左前下行枝中枢側の閉鎖に内胸動脈パッチを用いる工夫で，回旋枝の狭窄を回避した。

文 献

- 1) Nichols, L., Lagana, S. and Parwani, A.: Coronary artery aneurysm: a review and hypothesis regarding etiology. *Arch. Pathol. Lab. Med.* **132**: 823-828, 2008.
- 2) Swaye, P.S., Fischer, L.D., Litwin, P. et al.: Aneurysmal coronary artery disease. *Circulation* **67**: 134-138, 1983.
- 3) Diaz-Zamudio, M., Bacilio-Perez, U., Herrera-Zarza, M.C. et al.: Coronary artery aneurysms and ectasia: role of coronary CT angiography. *Radiographics* **29**: 1939-1954, 2009.
- 4) Jha, N.K., Ouda, H.Z., Khan, J.A. et al.: Giant right coronary artery aneurysm—a case report and literature review. *J. Cardiothorac. Surg.* **4**: 18, 2009.
- 5) Alcock, R., Naoum, C. and Ng, A.C.: Giant right coronary aneurysm: a case of mistaken identity. *Eur. Heart J.* **32**: 2712, 2009.
- 6) Keyser, A., Hilker, M.K., Husser, O. et al.: Giant coronary aneurysms exceeding 5 cm in size. *Interact. Cardiovasc. Thorac. Surg.* **15**: 33-36, 2012.
- 7) Cohen, P. and O’Gara, P.T.: Coronary artery aneurysms: a review of the natural history, pathophysiology, and management. *Cardiol. Rev.* **16**: 301-304, 2008.
- 8) Demopoulos, V.P., Olympios, C.D., Fakiolas, C.N. et al.: The natural history of aneurysmal coronary artery disease. *Heart* **78**: 136-141, 1997.
- 9) Patricia, D., William, J.M., D. Russel, H. et al.: Giant coronary artery aneurysms: review and update. *Tex. Heart Inst. J.* **41**: 603-608, 2014.
- 10) Bito, Y., Sasaki, Y., Hirai, H. et al.: A surgical case of expanding bilateral coronary aneurysms regarded as immunoglobulin G4-related disease. *Circulation* **129**: e453-e456, 2014.
- 11) Alfonso, F., Perez-Vizcayno, M.J., Ruiz, M. et al.: Coronary aneurysms after drug-eluting stent implantation: clinical, angiographic, and intravascular ultrasound findings. *J. Am. Coll. Cardiol.* **53**: 2053-2060, 2009.
- 12) Koike, H., Iguchi, A., Nakajima, H. et al.: Optimal operative strategies in repair of giant coronary artery aneurysms determined by the anatomic futures. *J. Jpn. Coron. Assoc.* **19**: 30-35, 2013.
- 13) Ueyama, K., Tomita, S., Takehara, A. et al.: A case of surgical treatment for cardiac tamponade caused by a ruptured coronary aneurysm accompanied by a coronary artery-pulmonary artery fistula. *Kyobu Geka* **54**: 70-75, 2001.
- 14) Sekine, Y., Kitano, M., Akimoto, T. et al.: The saccular coronary aneurysm associated with coronary artery to pulmonary artery fistulae. *Kyobu Geka* **60**: 1137-1141, 2007.
- 15) Vitarelli, A., De Curtis, G., Conde, Y. et al.: Assessment of congenital coronary artery fistulas by transesophageal color Doppler echocardiography. *Am. J. Med.* **113**: 127-133, 2002.
- 16) Umana, E., Massey, C.V. and Painter, J.A.: Myocardial ischemia secondary to a large coronary-pulmonary fistula—a case report. *Angiology* **53**: 353-357, 2002.
- 17) Okeie, K., Mizuno, S., Nitta, Y. et al.: Clinical features of congenital coronary artery fistula in adult population: relationship between the form of bifurcation and coronary steal phenomenon. *Shinzo* **26**: 1029-1037, 1994.
- 18) Wilde, P. and Watt, I.: Congenital coronary fistulae; six new cases with a collective review. *Clin. Radiol.* **31**: 301-311, 1980.
- 19) Ono, M., Sudo, K. and Koishizawa, T.: Congenital coronary artery fistula: collective review of cases reported for recent five years in Japan. *Shinzo* **27**: 3-11, 1995.
- 20) Sasahashi, N., Takeuchi, T. and Fukuoka, M.: A case of multiple coronary artery aneurysms associated with bilateral coronary-pulmonary artery fistulae. *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **36**: 137-140, 2007.
- 21) Yamazaki, A., Hirayama, T., Misumi, H. et al.: Ruptured coronary artery aneurysm with a fistulous communication. *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **35**: 351-353, 2006.
- 22) Yamasawa, T., Furukawa, H., Kuwada, N. et al.: Surgical treatment for coronary-pulmonary artery fistula associated two aneurysms. a case report. *Kawasaki Med. J.* **40**: 123-127, 2014.
- 23) Konno, S. and Endo, M.: Congenital coronary disease. *Kokyu to Junkan* **21**: 379-409, 1973.
- 24) Aizawa, K., Saitou, T., Konishi, H. et al.: Coronary artery fistula: report of 9 cases. *J. Jpn. Coron. Assoc.* **14**: 25-29, 2008.
- 25) Guidelines for diagnosis and management of cardiovascular sequelae in Kawasaki disease (JCS 2013). http://www.j-circ.or.jp/guideline/pdf/JCS2013_ogawas_h.pdf
- 26) Cuttone, F., Guilbeau-Frugier, C., Roncalli, J. et al.: Left circumflex artery aneurysm: the end-to-end reconstruction. *Interact. CardioVasc. Thorac. Surg.* doi: 10.1093/icvts/ivv130.2015.
- 27) Nomura, F. and Ohno, T.: *In situ* coronary-coronary bypass grafting for a huge left coronary aneurysm. *Ann. Thorac. Cardiovasc. Surg.* **20**: 622-624, 2014.