左側相同を伴い 37 年後に再手術を要した遺残心房中隔欠損の 1 例

緒 方 裕 樹* 上 田 英 昭* 松 葉 智 之* 山 下 雄 史* 永 富 脩 二*
立 石 直 毅* 川 井 田 啓 介* 豊 川 建 二* 今 釜 逸 美* 井 本 浩*

心房中隔欠損 (atrial septal defect: ASD) の閉鎖術ではシャント遺残に気をつけなければならないが、欠損孔の下縁がない場合には特に注意を要する。初回手術から 37 年後に ASD の遺残短絡に対し再手術を行った症例を経験した。17 歳時に他院で ASD 閉鎖術を受けた 54 歳女性で、労作時の息切れを主訴に前医を受診し当院に紹介となった。精査の結果、左側相同および心房中隔欠損の遺残短絡とそれに伴う肺高血圧症と診断し手術を行った。術中所見では肝静脈の開口部に跨がるように遺残 ASD を認めた。欠損孔の上縁から頭側に向かって前回手術時に直接閉鎖を試みたと思われる縫合線を認めた。いわゆる“下縁欠損 ASD”に対し下端の閉鎖が不完全であったための遺残短絡と考えられた。再閉鎖を行い、術後は心合併症なく自宅退院した。ASD 下縁の閉鎖は特に確実にを行うよう心掛け、術後のチアノーゼ、心不全の発生に留意する必要がある。日心外会誌 48 巻 5 号: 313-315 (2019)

キーワード: 成人先天性心疾患; 心房中隔欠損症; 左側相同; 遺残短絡; 再手術

A Case of Residual Atrial Septal Defect with Left Atrial Isomerism Requiring Reoperation 37 Years after the First Operation

Yuki Ogata*, Hideaki Kanda*, Tomoyuki Matsuba*, Yushi Yamashita*, Shuji Nagatomi*, Naoki Tateishi*, Keisuke Kawaida*, Kenji Toyokawa*, Itsumi Imagama* and Yutaka Imoto* (Cardiovascular and Gastrointestinal Surgery, Kagoshima University Graduate School of Medical and Dental Sciences*, Kagoshima, Japan)

A 47-year-old female was admitted to our hospital for management of dyspnea. She had undergone surgery for an atrial septal defect (ASD) at the age of 17. Computed tomography revealed left isomerism, inferior vena cava interruption with azygos continuation and a residual ASD. Intra-operative findings showed that the residual ASD was positioned across the orifice of the hepatic vein. The previous suture line could be identified in the partially-closed atrial septum above the residual defect. Re-closure was performed without difficulties, and the patient's condition was good at discharge. Closure of ASD is a simple and basic procedure in cardiac surgery but care must be taken not to leave a shunt at the lower part of the defect, especially in cases with ASD defects in the lower margin. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 48: 313-315 (2019)

Keywords: adult congenital heart disease; atrial septal defect; left atrial isomerism; residual shunt; reoperation

心房中隔欠損 (atrial septal defect: ASD) の閉鎖術ではシャント遺残に気をつけなければならないが、欠損孔の下縁がない場合には特に注意を要する。今回われわれは、初回手術から 37 年後に ASD の遺残短絡に対して再手術を行った 1 例を経験したので報告する。

症 例

症例: 54 歳, 女。
主訴: 労作時の息切れ。

既往歴: 25 歳時に虫垂切除術。

現病歴: 17 歳時に他院で ASD に対して閉鎖術を受けていた。40 歳時に労作時の息切れが出現したため前医を受診した。心エコー検査で肺高血圧の所見を認め当院に紹介となった。

入院時所見: 身長 162.1 cm, 体重 50.3 kg, 脈拍 84/min, 血圧 96/44 mmHg, SpO₂ 97% (室内気), 頸静脈怒張なし, 胸部聴診上, II 音亢進あり。

血液検査所見: WBC 4.42×10³/μl, Hb 10.4 g/dl, PLT

2019 年 2 月 8 日受付, 2019 年 6 月 6 日採用
Corresponding author: Yuki Ogata
Cardiovascular and Gastrointestinal Surgery, Kagoshima University Graduate School of Medical and Dental Sciences, Kagoshima, Japan

*鹿児島大学大学院心臓血管・消化器外科学
〒 890-8520 鹿児島市桜ヶ丘 8-35-1

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 coronal CT image. The preoperative coronal CT image reveals the residual ASD (*) on the lower border of the interatrial septum. RPA, right pulmonary artery; RUPV, right upper pulmonary vein; RA, right atrium; LA, left atrium; LSVC, left superior *vena cava*.

342×10³/μl, ALB 3.8 g/dl, T-Bil 1.1 mg/dl, BUN 10.4 mg/dl, Cr 0.61 mg/dl, BNP 33.1 pg/ml.

胸部 X 線所見: CTR 53%, 胸水の貯留はなく, 肺血管陰影が増強していた。

心電図所見: 洞調律, 脈拍 80 回/分. 不完全右脚ブロック, V3 から V6 で陰性 T 波を認めた。

CT 所見: 両側上大静脈があり, 下大静脈 (IVC) は肝部以下で欠損していた。腎静脈以下の血流は奇静脈を介して右上大静脈 (RSVC) に還流していた。また気管支は両側 hyperarterial bronchus であり, 肺は両側 2 葉であった。以上の所見より左側相同 (多脾症) と考えられた。肝静脈の開口部に跨がる ASD を認めた (Fig. 1)。

心臓エコー所見: LVDd 42 mm, LVDs 26 mm, LAD 43 mm, LVEF 68.7% であった。肝静脈開口部に跨がる ASD を認めた。また中等度三尖弁閉鎖不全を認めた。

心臓カテーテル所見: 右房 (RA) 圧 2 mmHg, 平均肺動脈圧 24 mmHg, Qp/Qs=1.86 であった。酸素飽和度は室内気で RSVC 69.2%, RA 81.2% で, 心房レベルでの O₂ Step up があった。末梢での酸素飽和度は 97% であり, ASD は左右シャント主体であると判断した。

初回手術の記録が残っていないため, 前回どのような閉鎖法が行われたのか明らかではなかったが, 遺残短絡が原因の高肺血流による心不全と肺高血圧と考えられたため短

Fig. 2

Illustrated intraoperative findings. ASD (*) was near the orifices of the left superior *vena cava* and the hepatic vein, and the suture line of the previous operation was confirmed on the head side of the ASD. Ao, aorta; RSVC, right superior *vena cava*; RV, right ventricle; PA, pulmonary artery; HV, hepatic vein.

Fig. 3

Illustrated intraoperative findings. ASD was opened by incision of the previous suture line.

絡部閉鎖の再手術を行う方針となった。

手術所見: 胸骨再切開により心臓にアプローチした。両心耳は左心耳形態を呈しており多脾症に合致した所見であった。RSVC (32Fr.), 左上大静脈 (LSVC) (20Fr.), 肝静脈 (24Fr.) からの 3 本脱血 (括弧内は脱血管のサイズ), および上行大動脈への 1 本送血で人工心肺を確立した。上行大動脈を遮断, 心筋保護液を注入して速やかに心停止を得た。RA 斜切開を加えて心房内を確認したところ, 肝静脈の開口部に跨がるように遺残 ASD を認めた。欠損孔の上縁から頭側に向かって前回手術時に直接閉鎖を試みたと思われる縫合線を認めた (Fig. 2)。いわゆる“下縁欠損 ASD” (low fossa ovalis ASD¹⁾) に対し下端の閉鎖が不完全であったための遺残短絡と考えられた。いったん前回の縫合線を切開し良好な視野を得たのち (Fig. 3), 欠損孔下端から頭側に向かって直接閉鎖を行った (5-0 ポリ

プロピレン糸二重縫合)。手術時間 5 時間 37 分、大動脈遮断時間 34 分であった。

術後は胸骨骨髓炎のため創治癒に時間を要したが、心合併症なく自宅退院した。

考 察

ASD 閉鎖術後に IVC と左房 (LA) の交通を生じた報告は最初に Bedford よりなされ²⁾、以後これまでに多くの報告がある³⁻⁷⁾。この合併症の危険因子として大きな ASD、下縁欠損 ASD または inferior sinus venosus defect、部分肺静脈還流異常の合併などが指摘されている³⁾。ASD 下縁の確認が不十分で閉鎖が不完全になったことが原因と考えられるが、Eustachian valve が大きな症例でこれを ASD 下縁と間違えて IVC の血流を完全に LA に還流するようにパッチ閉鎖されていた症例も報告されている⁴⁾。

術後合併症以外に先天性異常として IVC-LA 交通の存在が報告されている。Burri らは自験例を含めた 22 例を報告しており、そのほぼ半数の 12 例に ASD (卵円孔開存の 1 例を含む) を認めた。ほとんどの症例にチアノーゼ、パチ指を認め、酸素飽和度 90% 未満の高度のチアノーゼは半数以上であった⁸⁾。

われわれの症例は多脾症であり、本症ではしばしば静脈系の異常を伴うことが知られている。初回手術前の画像や手術記録が失われているため詳細は分からないが、本来の形態として心房中隔が肝静脈の入口部に騎乗する形をとっていた可能性がある。さらに、LSVC があるために coronary sinus が拡大しており、これらの要因もあって、特に ASD 下縁付近の形態が分かりにくかったのかもしれない。先天性であれ医原性であれ IVC-LA 交通のある患者では多くが顕在性のチアノーゼを呈するが、本症例では左右シャント主体でチアノーゼは認められなかった。この理由として、他の症例と異なり下半身の静脈血の多くが奇静脈から SVC に還流しており肝静脈の血流のみが下方から還流しているため、右左シャントとなりにくかったのではないか

と考えている。

技術的な面として、初期の体外循環では IVC 脱血カニューレを RA の高位から挿入していた症例も多く、このカニューレのために視野が不良であった可能性がある。IVC への直接挿入、あるいは成人では大腿静脈からのカニューレ挿入を行うことで良好な視野のもと、確実な閉鎖が遂行できると考えている。

おわりに

37 年前の手術における ASD 閉鎖術後遺残短絡の 1 例を経験した。ASD 下縁の閉鎖は特に確実に行うよう心掛け、術後のチアノーゼ、心不全の発生に留意する必要がある。

文 献

- 1) Kouchoukos NT, Blackstone EH, Hanley FL et al. Kirklin/Barratt-Boyes Cardiac Surgery. 4th ed. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2012, pp 1149-81.
- 2) Bedford DE, Sellors TH, Somerville W et al. Atrial septal defect and its surgical treatment. Lancet 1957; 1: 1255-61.
- 3) Staple TW, Ferguson TB, Parker BM. Diversion of the inferior vena cava into the left atrium following atrial septal defect closure. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med 1966; 98: 851-8.
- 4) Sapin PM, Salley RK. Arterial desaturation and orthodeoxia after atrial septal defect repair: demonstration of the mechanism by transesophageal and contrast echocardiography. J Am Soc Echocardiogr 1997; 10: 588-92.
- 5) Lee YW, Lee WC, Chua S. Identifying diversion of inferior vena cava after repair of atrial septal defect. Int J Cardiovasc Imaging 2015; 31: 1447-9.
- 6) Zhang Y, Song H, Qiao X et al. Detection and diagnosis of iatrogenic inadvertent diversion of partial inferior vena cava into the left atrium by transesophageal echocardiography during large posteroinferior surgical atrial septal defect closure. J Anesth 2015; 29: 442-5.
- 7) Desai M, Talwar S, Kothari SS et al. Inferior vena cava to left atrium shunt presenting with polycythemia and stroke three decades following closure of atrial septal defect. Congenit Heart Dis 2013; 8: 102-5.
- 8) Burri H, Vuille C, Sierra J et al. Drainage of the inferior vena cava to the left atrium. Echocardiography 2003; 20: 185-9.