冠静脈洞型心房中隔欠損症 (partially unroofed coronary sinus without PLSVC) の1手術治験例

水 野 朝 敏 堀 越 茂 樹 江 本 秀 斗
宇 野 吉 雅 鈴 木 博 之

症例は21歳の男性、心房中隔欠損症と診断され入院した。心雑音、心エコー所見、心臓カテーテル検査所見より下縁欠損型心房中隔欠損症と診断し手術を施行したが、手術中に coronary sinus ASD と確定診断した。術前 coronary sinus ASD を確定診断することは難しいが、本症例は1) 心エコー検査にて、subcostal view からの四腔断面像で欠損孔は認めず、hepatoclavicular position からの四腔断面像のみで短絡血流を確認でき、さらに coronary sinus の拡大も認めていたこと、2) カテーテル検査にて心房中隔中央部に欠損孔を確認できず、それより尾側でカテーテルが左房へ通過したなど術前より coronary sinus ASD を示唆する所見が得られていた。本症を疑い、より詳細な観察を行うことで術前診断は可能と考えられた。また欠損孔閉鎖には coronary vein からの血流を妨げないこと、欠損孔の上前縁部で房室結節の損傷を避けることに注意が必要であった。日心外会誌 30 巻 2 号：80-82 (2001)

Keywords: coronary sinus ASD

Successful Surgical Closure of a Coronary Sinus Atrial Septal Defect Using a Heart-Shaped Patch

Asatoshi Mizuno, Shigeki Horikoshi, Hideto Emoto, Yoshimasa Uno and Hiroyuki Suzuki
(Department of Cardiovascular Surgery, Jikei University School of Medicine, Kashiwa Hospital, Chiba, Japan)

A 21-year-old man with coronary sinus atrial septal defect (ASD) was treated successfully. This case had been diagnosed as an ASD without a lower margin preoperatively but we confirmed this to be a coronary sinus ASD intraoperatively, and this case was classified as partially unroofed coronary sinus without PLSVC. The diagnosis of coronary sinus ASD before operation is sometimes difficult. Therefore we should pay attention to the location of the defect and the dilated coronary sinus in echocardiography, and the course of the cardiac catheter entering into the left atrium, for a correct diagnosis. In this case, the defect was located in the vicinity of the ostium of a large coronary sinus, therefore we could close the defect between the CS and the LA using a heart-shaped patch without any damage to the AV node. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 30: 80-82 (2001)

冠静脈洞型心房中隔欠損症 (coronary sinus ASD) は ASD のなかでも希な疾患であり、その報告例は少ない¹⁻¹²⁾。また本症は術前に確定診断することが困難な疾患であり、超音波断層検査にて術前診断することができた報告例もある^{4,13)}が、多くの症例は手術中^{3,6,7,10-12)}や剖検^{1,2)}にて診断されている。今回われわれは下縁欠損型 ASD の診断にて手術を施行し、術中に coronary sinus ASD と判明した症例を経験したが、retrospective に術前の検査結果を再検討すると coronary sinus ASD を強く示唆する所見が得られていたので若干の考察を加え報告する。

症 例

症例：21歳の男性。

主訴：心雑音。

既往歴、家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：他院にて椎間板ヘルニア手術のさい、心雑音を指摘され心エコー検査にて心房中隔欠損症と診断され、手術目的にて紹介された。

入院時現症：身長 165 cm、体重 65 kg、血圧 126/84 mmHg、脈拍 74/分、胸骨左縁第2肋間に LevineII/VI 度の収縮期雑音および II 音の固定性分裂を聴取した。

心電図所見：洞調律で整脈、不完全右脚ブロックと +100 度の右軸偏位を認めた。

胸部 X 線所見：CTR 54% の心拡大および肺血管陰影の増強を認めた。

図1 術中写真および手術シェーマ

RA: right atrium, LA: left atrium, CS: coronary sinus, GCV: great cardiac vein.

心エコー所見：右心系の拡大と心室中隔の奇異性運動を認めた。Hepatoclavicular positionからの四腔断面像にて径23 mmの欠損孔を心房中隔に認め、カラードプラーにて左房から右房への短絡血流を認めた。

術前心臓カテーテル検査所見：右心房中央にてO₂ step upを認め、L-R shunt 64.5%, Qp/Qs 2.82であった。カテーテルにて心房中隔欠損孔の通過を試みたが、心房中隔中央部には欠損孔を認めず、やや尾側にて左房へカテーテルが通過した。以上より下縁欠損型心房中隔欠損症と診断した。

手術所見：胸骨正中切開にて心臓へ到達した。右房、右室の拡大を認めたが、肺静脈還流異常、左上大静脈は認めなかった。常温体外循環、大動脈遮断後、cardioplegiaによる心停止下に右房を切開すると、卵円窩には欠損孔を認めず、拡大したcoronary sinusを認めた。coronary sinusを検索するとcoronary veinはcoronary sinusの尾側に開口しており、coronary sinusの頭側に左房への交通孔を認め、coronary sinus ASDと術中確定診断した。欠損孔の閉鎖はcoronary veinからの血流を妨げないようにハート型の牛心膜パッチを用いた。また欠損孔の上前縁部の縫合線は房室結節に接近するため、心房中隔の辺縁に浅くstichをおきパッチを縫着した。術後不整脈は認めず経過良好であった(図1)。

考 察

Coronary sinus ASDはASDのなかでも希な疾患で、その報告例は少ない¹⁻¹²⁾。またcoronary sinus ASDを術前に確定診断するのは難しく、超音波断層検査や心臓カテーテル検査にて術前診断することができた報告例もあ

る^{4,5,13-15)}が、多くの症例は手術中^{3,6,7,10-12)}や剖検^{1,2)}にて診断されている。本症例も術前診断は下縁欠損型ASDで、術中にcoronary sinus ASDと確定診断したが、retrospectiveに心エコー検査や心臓カテーテル検査を検討すると、coronary sinus ASDを疑わせる所見が得られていた。高橋ら⁴⁾は臨床的にASDを疑わせる症例で、通常の四腔断面像で欠損孔が認められないときは冠状静脈洞開口部付近を詳細に検索する必要があると報告している。また藤間ら¹⁴⁾はsubcostal viewで通常部位に欠損孔を発見できず、parasternal approachの左室短軸断面のやや四腔断面に近い像で、長軸像の冠静脈洞に一致した部分の拡大および左房と右房の交通した所見を得、冠状静脈洞欠損を疑診したと報告している。本症例の場合、subcostal viewからの四腔断面像では欠損孔は認められず、短絡血流を確認できたのはhepatoclavicular positionからの四腔断面像であり、さらにcoronary sinusの拡大も認めていたことよりcoronary sinus ASDを示唆する所見であったと考えられる。またカテーテル検査にて心房中隔中央部に欠損孔を確認できず、それより尾側でカテーテルが左房へ通過した所見を併せるとcoronary sinus ASDを診断の一つに考えておくべきであった。

Coronary sinus ASDの発生原因は、在胎10~15体節期に心房一次中隔とleft atriovenous foldとの癒合不全あるいは発育不全が生じることによると考えられている¹⁶⁾。この一連の発生段階の異常である疾患群をQuaeghebeurら⁹⁾は分類したが、これによると本症例はpartially unroofed coronary sinus without PLSVCと分類される。

手術手技上の問題点として、PLSVCを合併した場合はその処理方法もさまざまである^{9,17)}が、本例のように

PLSVC を合併しない場合の手術方法は (1) coronary sinus を閉鎖し、冠静脈還流を左房側へ残す方法^{3,11,16)}、(2) 冠静脈と左房壁の間に存在する交通孔を閉鎖し、静脈血を右房へ導く方法の二つである。(2)の方法のうち欠損孔を直接縫合した報告としては、卵円窩を切開し左房側を検索し、交通孔を直接閉鎖した報告¹⁰⁾、ASD の前半縁をなす部分を欠損部下縁と直接連続縫合した報告¹²⁾がある。いっぽうパッチを用いた報告としては、中隔欠損開口部を拡大し、三日月型のパッチを用いて、冠静脈洞開口部を右心房内に転位させると同時に心房中隔欠損孔を閉鎖した報告¹⁸⁾、左房側より交通孔をパッチ閉鎖した報告⁸⁾、三日月型のパッチを用いて欠損孔を閉鎖した報告⁶⁾があり、症例ごとの工夫が必要と考えられた。また通常この交通孔は左房後壁に存在するため、経中隔的に左房よりアプローチすることが多い⁸⁾が、本症例では交通孔が右房寄に位置し、心房中隔切開を行わなくても coronary sinus のなかから交通孔を確認することができた。また coronary vein は coronary sinus の尾側に開口していたため、交通孔の閉鎖において coronary vein からの血流を妨げないようにハート型パッチを縫着した。さらに本疾患において房室結節と His 束の位置は正常と変わらなないと報告されている⁹⁾が、欠損孔の上前縁部の縫合線は房室結節に接近するため、パッチの縫着において stich を心房中隔の辺縁に浅くおき伝導障害を予防した。伝導障害の予防のためには個々の症例ごとに慎重な手術操作が必要と考えられた。

結 語

希な疾患である coronary sinus ASD を経験し、良好な結果を得た。術前 coronary sinus ASD を確定診断することは困難であるが、本症を疑い、詳細な観察を行うことで診断は可能と考えられた。本疾患単独での手術成績は良好であるが、縫合閉鎖、パッチ閉鎖、伝導障害予防など、症例ごとの工夫が必要と考えられた。

文 献

- 1) 岡田了三: 先天性心疾患. 日本臨床 **34**: 1676-1679, 1976.
- 2) 北野幸英, 大川真一郎, 伊藤雄二ほか: 冠状静脈洞型心房中隔欠損症 (Coronary Sinus ASD) の 1 剖検例. 心臓 **12**: 102-106, 1980.
- 3) 井上智勝, 有光克次郎, 本多正治ほか: 冠静脈洞心房中隔欠損症の 1 手術治験例—本邦報告例の検討—. 日胸外会誌 **41**: 474-478, 1993.
- 4) 高橋久子, 坂本二哉, 天野恵子ほか: 特徴的なカラードブラー断層所見を呈した冠静脈洞型心房中隔欠損症の 1 手術例. J. Cardiography **15**: 1283-1291, 1985.
- 5) Hamada, Y., Ebihara, H., Tanimoto, Y. et al.: Unroofed coronary sinus demonstrated by two-dimensional echocardiography. Am. Heart J. **108**: 1558-1560, 1984.
- 6) 飯島哲夫, 谷口棟一郎, 尾内弘次ほか: Coronary Sinus ASD の 1 治験例. 日胸外会誌 **25**: 1523, 1977.
- 7) 高橋賢二, 丸山 章, 百川 健ほか: 脳膿瘍を合併した Pure Unroofed Coronary Sinus Syndrome with LSVC の 1 治験例 (本邦報告第 1 例). 日胸外会誌 **33**: 2155-2161, 1985.
- 8) 末広茂文, 宮本 巍, 清水幸宏ほか: Coronary sinus septal defect の 1 手術治験例. 日胸外会誌 **32**: 424, 1984.
- 9) Quaegebeur, J., Kirklin, J. W., Pacifico, A. D. et al.: Surgical experience with unroofed coronary sinus. Ann. Thorac. Surg. **27**: 418-425, 1979.
- 10) 柿本祥太郎, 麻田邦夫, 大関道磨ほか: 冠状静脈洞型心房中隔欠損症の 1 治験例. 胸部外科 **37**: 850-853, 1984.
- 11) 土屋幸治, 飯田良直, 藤原 直ほか: 冠状静脈洞型心房中隔欠損症の 1 手術治験例. 胸部外科 **34**: 806-809, 1981.
- 12) 小西理雄, 信岡 亘, 横山繁樹ほか: 冠静脈洞部心房中隔欠損症の 1 手術経験. 胸部外科 **36**: 667-670, 1983.
- 13) 金谷誠一郎, 森 渥視, 田畑良宏ほか: 術前診断が可能であった冠静脈洞心房中隔欠損症の治療経験. 日胸外会誌 **345**: 1207-1211, 1987.
- 14) 藤関義樹, 西藤誠子, 相模龍太郎ほか: 冠状静脈洞型心房中隔欠損症の超音波心断層像. 心臓 **17**: 748-752, 1985.
- 15) 饗庭 了, 石倉義弥, 小田桐重遠ほか: 左無名静脈欠損の不完全型 Lucas-Schmidt 分類 IB 2 型三心房及び冠静脈洞心房中隔欠損の 1 例. 日胸外会誌 **37**: 159-164, 1989.
- 16) Raghbi, G., Ruttenberg, H. D., Anderson, R. C. et al.: Termination of left superior vena cava in left atrium, atrial septal defect, and absence of coronary sinus. Circulation **31**: 906-918, 1965.
- 17) 小田勝志, 安藤史隆, 岡本文雄ほか: Unroofed coronary sinus の外科的治療. 胸部外科 **46**: 423-427, 1993.
- 18) 井上宏司, 古瀬 彰, 三枝正裕: Coronary Sinus ASD の 1 手術例. 心臓 **10**: 725-729, 1978.