胸痛を伴った冠動脈肺動脈瘻の1治験例

石川和徳* 星野俊一 緑川博文
小川智弘 佐藤晃一

胸痛を契機に発見された、希な先天性心疾患である冠動脈肺動脈瘻に対し肺動脈内腔側からの瘻孔閉鎖術を施行したので報告する。症例は51歳、女性。労作時前胸部痛の精査のため施行された冠動脈造影検査にて、左前下行枝と回旋枝から起始し、肺動脈本幹に流入する冠動脈肺動脈瘻を認めた。左右短絡量は5.8%と少量であったが、瘻孔以下の冠動脈造影が不良であったことから、胸痛は冠動脈肺動脈瘻により心筋虚血が発生した可能性が高いと判断し手術適応とした。完全体外循環心拍動下に肺動脈を縦切開し、内腔側に確認された二つの瘻開口部を直接縫合閉鎖した。術後経過は良好であり、胸痛の再発は認めなかった。術後冠動脈造影上、肺動脈への流入こそ認めなかったが、冠動脈肺動脈瘻は全体にわたり造影された。より確実な瘻孔閉鎖と瘻への血流遮断のためには、さらに瘻結紮術を行うべきであった。日心外会誌 31 巻 3 号：187-190 (2002)

Keywords：冠動脈瘻，冠動脈肺動脈瘻，coronary steal 現象

A Case of Chest Pain as an Initial Symptom of Coronary-Pulmonary Arterial Fistula

Kazunori Ishikawa*, Shunichi Hoshino, Hirofumi Midorikawa, Tomohiro Ogawa and Kouichi Sato (Cardiovascular Center, Fukushima Daiichi Hospital, Fukushima, Japan)

A 51-year-old woman suffered from a sudden onset of anterior chest pain and was referred to our hospital on the suspicion of an anginal attack. The exercise ECG showed findings of an anterior lesion and ischemia. Coronary angiography also revealed left anterior descending branch fistula and circumflex branch fistula connecting to the main pulmonary artery trunk. Direct closure was performed for both intra-pulmonary openings under cardiopulmonary bypass. The postoperative course was uneventful and the patient did not show any precordial pain. Coronary angiography showed no coronary organic narrowing, but contrast medium remained in the fistulae although there was no left to right shunt. Ligation of the fistulae had to be performed simultaneously to confirm complete obstruction of the coronary-pulmonary arterial fistulae. The antiplatelet agent is administered to the patient to prevent occurring myocardial infarction caused by thrombus which might be formed in fistulae. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 31 : 187-190 (2002)

冠動脈瘻は希な先天性心疾患であり、自覚症状が乏しく以前は報告例が少なかった。しかし、近年の冠動脈造影検査症例の増加に伴い、発見の機会が増加している。今回われわれは、狭心痛を伴った冠動脈肺動脈瘻に対し、肺動脈内腔側からの瘻孔閉鎖術を施行したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：51歳、女性。

主訴：前胸部痛。

既往歴：46歳時子宮筋腫にて子宮摘出術。

現病歴：2000年11月軽労作中に約10分間持続する強い前胸部痛を主訴に当院救急外来を受診。来院時症状は消失し心電図異常も認めなかったが、狭心症を疑われ精査目

的に入院となった。

入院時現症：身長157cm，体重67kg，血圧120/76mmHg，脈拍76/分，整。心雑音は聴取せず，理学所見および血液検査は正常であった。

胸部X線所見：心胸郭比は50%，肺野に異常陰影や肺血管陰影の増強は認めなかった。

心電図所見：正常洞調律，正常軸。安静時心電図には虚血性変化は認めなかったが，トレッドミル運動負荷（Bruce；stage III）で前壁領域の虚血性心電図変化を認めた（図1）。

心臓カテーテル検査所見：心内圧は正常であった。血液酸素飽和度は肺動脈で1.9%上昇し，左右シャント率は5.8%であった。熱希釈法による心拍出量は5.9 l/min，心係数は3.5 l/min/m²であった。左室の収縮は良好で左室駆出率は67%であった。右冠動脈造影は正常であったが，左冠動脈造影で，Seg. 6およびSeg. 11から起始し，屈曲蛇行しながら肺動脈主幹部の肺動脈弁直上に流入する径3～4mmの冠動脈肺動脈瘻を認めた。瘻孔以下の左冠

2001年4月9日受付，2001年9月4日採用

福島第一病院心臓血管病センター

*現 福島県立医科大学心臓血管外科 〒960-1295 福島市光が丘1

図1 トレッドミル負荷心電図所見

a: 負荷開始前, b: Bruce protocol stage IIIで前壁領域の虚血所見を認めた。

動脈の造影は不良であった(図2上)。以上から、冠動脈肺動脈瘻による左右シャント率は5.8%と低率であったが、冠動脈造影所見上、瘻孔以下の冠動脈の造影が不良であり、胸痛は冠動脈肺動脈瘻による心筋虚血の可能性が高いと判断し、手術適応とした。

手術所見：胸骨正中切開，上・下大静脈脱血，上行大動脈送血で体外循環を開始した。完全体外循環心拍動下に肺動脈弁直上で肺動脈主幹部に縦切開を加え内腔を観察すると、右半月弁と前半月弁交連部直上に拍動性に動脈血が噴出する径5 mmのslit状の開口部を認め、pledget付き4-0モノフィラメント糸にてマットレス縫合で閉鎖した。さらに、前半月弁と左半月弁交連部直上には径2 mmの開口部を認め、4-0モノフィラメント糸にて直接縫合閉鎖した(図3)。他の開口部がないことを確認後、肺動脈を閉鎖して手術を終了した。術中に心電図変化は認めなかった。

術後心臓カテーテル検査所見：心内圧値、心機能は術前と比較して変化を認めず、血液酸素飽和度の肺動脈での上昇は消失した。冠動脈造影上、左冠動脈から起始する冠動脈肺動脈瘻は全体が造影されたが、肺動脈への流入は認めなかった。術前不良であった瘻孔以下の左冠動脈は全体にわたり良好に造影された。冠動脈に有意な狭窄所見は認めず(図2下)、現在経過良好で外来通院中である。

図2 冠動脈造影所見

上：術前左冠動脈造影。Seg. 6 および Seg. 11 から起始し、肺動脈主幹部の肺動脈弁直上に流入する瘻血管を認める。瘻孔以下の冠動脈の描出は不良である。下：術後左冠動脈造影。冠動脈肺動脈瘻は全体にわたり造影されたが、肺動脈への流入は認めなかった。術前不良であった瘻孔以下の冠動脈は良好に描出された。

考 察

先天性冠動脈肺動脈瘻は、その頻度が全先天性心疾患のうち0.04~0.1%程度の比較的希な心疾患である^{1,2)}。本症の成因についてはいまだ確定したものはないが、瘻孔を形成する血管は組織学的に動脈性であることから、肺動脈から起始する副冠動脈が大動脈から起始した冠動脈と交通することにより生じるのではないかと考えられている³⁾。本例では2本の冠動脈肺動脈瘻が左冠動脈から流出し肺動脈主幹部に流入していたが、最近の報告では両側冠動脈から流出し肺動脈主幹部へ流入するものが圧倒的に多い⁴⁾。しかし、以前の報告例では左右いずれかの冠動脈から流出し、右室または右房に流入するものが多く⁵⁾、大きな相違がみられる。この原因として、選択的冠動脈造影検査を受ける症例数が増加し、それまでの大動脈造影主体の検査で

図3 術中所見

上：肺動脈内腔側には、径5 mm（矢印）と径2 mmの開口部を認めた。下：径5 mmの開口部はpledget付き4-0モノフィラメント糸にてマットレス縫合を行い閉鎖した。径2 mmの開口部は4-0モノフィラメント糸で直接閉鎖した。

は見逃されたような、短絡量の少ない症例も発見される機会が増加したことがあげられる。本症は短絡量が少量の場合は無症状に経過することが多いが、短絡量が多くなるにしたがい心不全、狭心症そして細菌性心内膜炎などの症状を呈するようになる³⁾。狭心症の発症は10歳代と40歳代に多い⁶⁾。短絡量が多い場合、coronary steal現象により冠動脈末梢への血流が減少するため心筋虚血を早期からきたし、症状を呈しやすくなることは想像に難くない。また、本症例のように50歳代で胸痛を呈した場合は、加齢による冠動脈自体の動脈硬化性病変の進行や瘻以下の冠動脈の發育不全から、肺動脈への短絡量が増加し心筋虚血が生じやすくなる報告がある⁷⁾。本症例では冠動脈造影上狭窄や形成不全の所見は認めていない。しかし、術前では、瘻以下の造影が著しく不良であったことから、測定された短絡量は冠血流減少によるcoronary steal現象をきたしうるに十分であったものと考えられた。

本疾患に対する手術適応について、本邦では今野ら⁸⁾が

報告した、1) 無症状例であっても、短絡量が30%以上の場合、2) 心電図上虚血性変化または負荷が認められるもの、3) 細菌性心内膜炎の既往がある場合、4) 肺高血圧または心不全の進行が考えられる場合、5) 冠動脈瘤を形成し、破裂の危険がある場合とする基準が普及している。しかし、手術施行群と非施行群の遠隔成績を検討し、生存率には有意差を認めないことから、無症状例に対する手術には慎重なJaffeら⁷⁾の報告の一方で、将来的なほかの冠動脈疾患や細菌性心内膜炎の予防のため積極的に手術を勧めるGobelら³⁾の意見もあり、いまだ一定の見解が存在しないのが現状である。

本症例では、冠動脈肺動脈瘻の存在により危惧される合併症の予防、さらには、術前には瘻孔以下の冠動脈の造影が不良であったことから、計測された短絡量は少量ではあったが、虚血性心疾患の発症を予防する目的で手術適応とした。

手術術式は、かつては体外循環を使用せずに瘻結紮を行ったが、多発性瘻孔例などでは遺残瘻孔が問題となった^{1,9)}。近年の体外循環技術の向上により、安全性の高い体外循環下の手術が可能となり、最近では瘻孔を確実に確認でき、肺動脈への開口部の閉鎖が可能であることから、体外循環下に肺動脈内腔からの瘻孔閉鎖術を行う報告例が多く^{1,10)}、肺動脈本幹にのみ瘻孔を認めた本症例でも同様の術式を施行した。完全体外循環心拍動下の手術は、瘻開口部から拍動性に噴出する短絡血を確認でき、確実な瘻孔の閉鎖が可能であり、有用な術式であると考えられた。

術後の冠動脈造影では、肺動脈への流入は認めなかったが、冠動脈肺動脈瘻は全体にわたり造影された。将来的には冠動脈肺動脈瘻血管内に生じた血栓が冠動脈に流入することによる心筋梗塞の発症や、瘻血管の瘤化や破裂の可能性などの危惧を残す結果となった。より確実な瘻孔閉鎖と血流遮断のために、さらに瘻結紮術を行うべきであったと考えている。現在は血栓形成予防のため抗血小板剤を投与し、今後は心臓超音波や造影CTなどで慎重に経過を観察していく方針である。

結 語

狭心痛を契機に発見された51歳、女性の冠動脈肺動脈瘻に対し、完全体外循環心拍動下に肺動脈内腔側から瘻孔閉鎖術を施行した。術後の冠動脈造影では冠動脈肺動脈瘻は全体にわたり造影され、今後の慎重な経過観察が必要であると考えられた。

文 献

- 1) 島田昇二郎, 青柳成明, 小須賀健一ほか：冠動脈肺動脈瘻の3手術治験例。胸部外科 37: 949-953, 1984.
- 2) 福田恵一, 半田俊之介, 谷 正人ほか：先天性冠動脈肺動脈

- 瘻の 3 例—本邦報告例の文献的検討を含めて—。心臓 17 : 1271-1277, 1985.
- 3) Gobel, F. L., Anderson, C. F., Baltaxe, H. A. et al. : Shunt between the coronary and pulmonary arteries with normal origin of the coronary arteries. *Am. J. Cardiol.* 25 : 655-661, 1970.
- 4) 笹野 進, 板岡俊成, 神楽坂治彦ほか : 両側冠動脈肺動脈瘻の 1 例. 胸部外科 46 : 520-523, 1993.
- 5) Oldham, H. N., Ebert, P. A., Young, W. G. et al. : Surgical management of congenital coronary artery fistula. *Ann. Thorac. Surg.* 12 : 503-513, 1971.
- 6) 古瀬 彰, 松本博志, 山口貴司ほか : 冠不全を伴う冠動脈瘻. 心臓 8 : 1047-1054, 1976.
- 7) Jaffe, R. B., Glancy, D. L., Epstein, S. E. et al. : Coronary arterial-right heart fistulae. Long-term observation in seven patients. *Circulation* 47 : 133-143, 1973.
- 8) 今野草二, 遠藤真弘 : 先天性冠動脈疾患. 呼吸と循環 21 : 397-409, 1973.
- 9) 佐藤博文 : 冠動脈肺動脈異常交通症の外科治療. 日胸外会誌 27 : 1729-1735, 1979.
- 10) 村口和彦, 酒井克治, 山田 正ほか : 狭心痛を伴った両側冠動脈肺動脈瘻の 1 手術例. 胸部外科 38 : 399-403, 1985.