

未破裂巨大瘤を合併した冠動脈瘻の1例

A Case of Coronary Fistulas Complicated with Unruptured Giant Aneurysm

佐藤 秀之^{1,*} 原田 昌彦² 渡邊 善則³ 林 京子² 原文彦¹ 南條 修二¹ 山科 昌平¹ 我妻 賢司¹
中野 元¹ 濱田 聡³ 藤井 毅郎³ 塩野 則次³ 小山 信彌³ 山崎 純一¹Hideyuki SATO, MD^{1,*}, Masahiko HARADA, MD, FJCC², Yoshinori WATANABE, MD³, Kyoko HAYASHI, MT²,
Fumihiko HARA, MD¹, Shuji NANJO, MD¹, Syohei YAMASHINA, MD¹, Kenji WAGATSUMA, MD¹,
Hajime NAKANO, MD¹, Satoshi HAMADA, MD³, Takeshiro FUJII, MD³, Noritsugu SHIONO, MD³,
Nobuya KOYAMA, MD³, Junichi YAMAZAKI, MD, FJCC¹¹ 東邦大学医療センター大森病院循環器内科, ² 東邦大学医療センター大森病院臨床生理機能検査部, ³ 東邦大学医療センター大森病院心臓血管外科

要約

症例は高血圧にて近医加療中の58歳女性で、心雑音精査にて受診となった。心エコー検査にて左室前方に大きな瘤状構造物を認め、巨大瘤を伴った冠動脈肺動脈瘻と診断した。冠動脈造影検査では、左右冠動脈から肺動脈起始部へ開口する冠動脈瘻と、左冠動脈近位部に径5 cmの巨大瘤を認めた。薬剤負荷心筋シンチグラフィで虚血性変化は認めなかったが、破裂の危険性を考慮し外科的治療を行った。冠動脈瘻は肺動脈基部および右室流出路に開口し、冠動脈近位部から瘻血管が分岐して巨大瘤に流入していた。人工心肺下に瘤切除と瘻閉鎖術を施行し、術後経過は良好である。瘤を形成した瘻血管が破裂して心タンポナーデを発症することもまれではない。今回、我々は無症状で発見された巨大瘤を伴った冠動脈瘻の手術例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

<Keywords> Aneurysms
Coronary artery disease, coronary fistula

J Cardiol Jpn Ed 2008; 2: 69–73

はじめに

冠動脈瘻は、冠動脈の末梢の一部が心腔内や肺動脈などの本来と異なる部位に開口する先天性の走行異常である。近年、心エコー検査や冠動脈造影検査において偶然に発見される機会が増加している。一般にはほとんどが無症状で経過するものの、中には瘤を形成し、破裂による心タンポナーデを発症して初めて本症と診断されることも稀ではない。今回我々は、労作時息切れと心雑音の精査で偶然発見された巨大瘤を伴った冠動脈瘻の1例を経験した。その診断に心エコーと3DCTが有用であり、合併症なく根治手術を行うことができたので、文献的考察を加えて報告する。

症例

症例 58歳、女性。

主訴 労作時息切れ。

既往歴 48歳-子宮筋腫摘出術、50歳-高血圧症(薬物

療法)、52歳-高脂血症(食事療法)。

家族歴 父が高血圧。

現病歴 50歳頃から高血圧症で薬物治療を受けるようになった。2005年春頃より階段昇降時の息切れを自覚するようになり、同年10月に近医を受診したところ心雑音を指摘され、精査目的で当院を紹介された。外来で行った心エコー検査にて左室前方に約4 cm大の巨大瘤を伴った冠動脈瘻が疑われたため、2006年2月精査目的で入院となった。

入院時現症 身長148 cm、体重62 kg、血圧120/62 mm Hg、脈拍62/分 整、体温36.2°C、貧血なし、頸静脈怒脹なし、呼吸音正常、心音純、胸骨左縁第2-3肋間にLevine III/VIの連続性雑音を聴取した。腹部異常所見なし、下肢浮腫なし。

血液・生化学所見 WBC 5,500/ μ l, RBC 4.42×10^4 / μ l, Hb 13.4 g/dl, Ht 39.3%, Plt 19.7×10^4 /ml, TP 7.3 g/dl, Alb 4.1 g/dl, T-Bil 0.7 mg/dl, AST 45 IU/l, ALT 71 IU/l, LDH 402 IU/l, CK 70 IU/l, BUN 13 mg/dl, Cr 0.55 mg/dl, T-Chol 273 mg/dl, LDL-C 198 mg/dl, Na 140 mmol/l, K 4.2 mmol/l, Cl 108 mmol/l, CRP 0.0 mg

* 東邦大学医療センター大森病院循環器内科
143-8541 東京都大田区大森西 6-11-1

2008年3月11日受付, 2008年4月1日改訂, 2008年4月15日受理

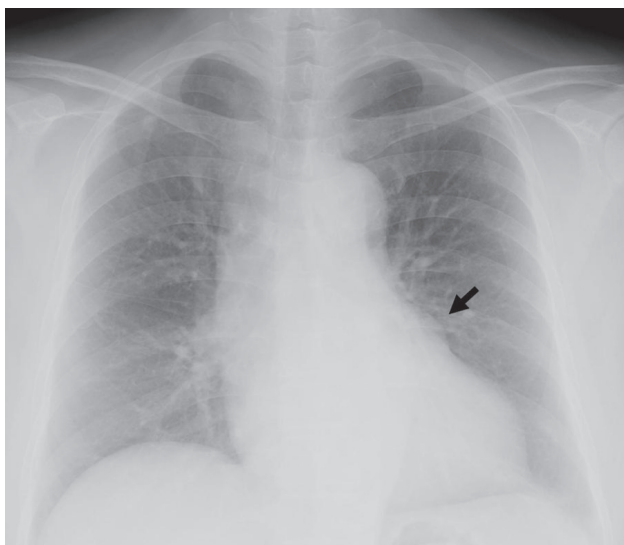


図1 胸部 X-P.
左第3弓にわずかな突出を認める。

/dl, BNP 27.0 pg/ml. 血液ガス (room air) pH 7.390, PCO₂ 41.0 mmHg, PO₂ 85.2 mmHg, HCO₃ 24.3 mmol/l, SpO₂ 96.7%.

心電図：正常洞調律，ST-T変化なし。

胸部X線：心胸郭比は54%で，左第3弓にわずかな突出を認めた(図1)。

経胸壁心エコー図：大動脈弁や僧帽弁には異常はなく，左室壁運動も正常であった。左室短軸像乳頭筋レベルにおいて，右前方に43×37mm大のecho-lucentな球状の異常構造物を認め，壁の一部は石灰化を伴っていた(図2)。カラードプラ法では，この異常構造物の周囲に蛇行するモザイクシグナルを認め，右室流出路および肺動脈起始部に流入する異常血流が全時相に渡って観察された。さらに，カラードプラの速度レンジを下げたところ，この異常構造物内に流入する血流シグナルが検出された(図3上)。パルスドプラ法では連続性の血流パターンを示し，最大流速は約80 cm/sであった(図3下)。以上の所見より，右室流出路および肺動脈起始部へ開口する冠動脈瘻と診断し，この球状の異常構造物は冠動脈瘻の血管が巨大瘤を形成したものと考えた。

胸部CT：肺動脈に隣接した左前方に巨大瘤(径38×38 mm)を認め，壁の一部には石灰化を伴っていた(図4)。3D画像では，左前下行枝前方に巨大瘤とその周囲から右室流出路および肺動脈起始部にかけて大小不同の蛇行した異

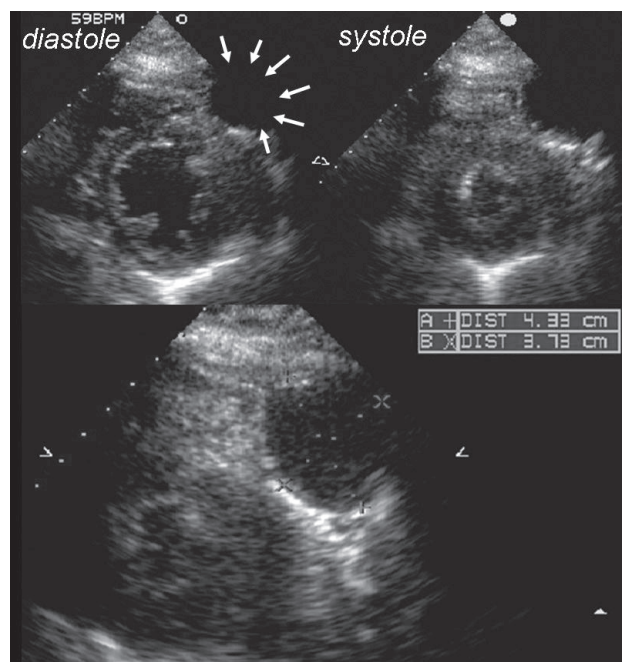


図2 経胸壁心エコー図。
左室短軸像乳頭筋レベルで右前方に43×37mmのecho-lucentな球状の異常構造物を認める。

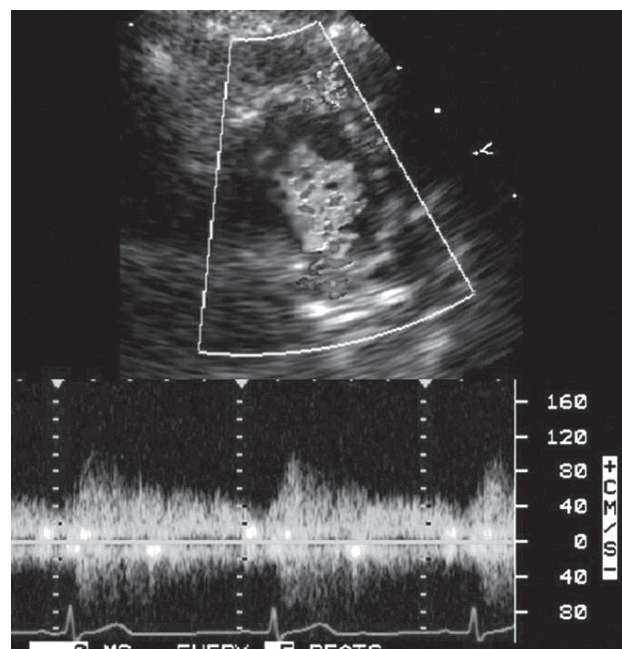


図3 経胸壁心エコー図。
カラードプラ法では異常構造物内に流入する血流シグナルが検出され(上図)，パルスドプラ法では連続性の血流パターンを示した(下図)。

常血管を認めた。さらに，右冠動脈からも肺動脈起始部にかけて異常血管が観察された(図5)。

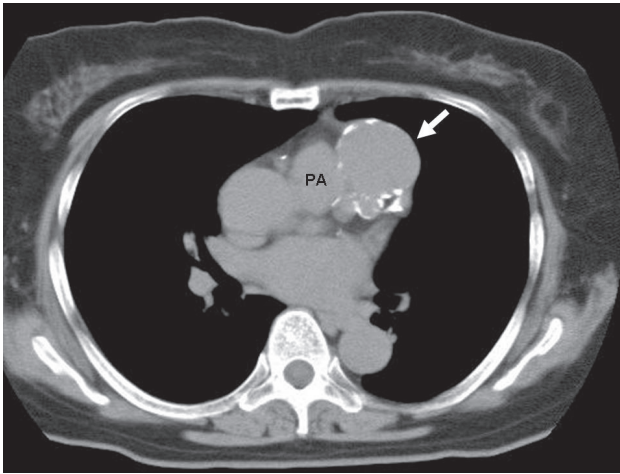


図4 胸部CT.
肺動脈 (PA) に隣接した左前方に巨大瘤 (38×38 mm) を認め、瘤の一部には石灰化を伴っている。

冠動脈造影：右冠動脈入口部より網状の異常血管が分岐し、肺動脈への流入を認めた。左冠動脈は前下行枝分岐直後より異常血管が分岐し、巨大瘤を形成してさらに肺動脈へ流入していた (図6)。左前下行枝は造影剤が瘤へ流れ込んでしまい異常血管分岐部以下での造影は不十分であり、左右シャント率は15%であった。

入院後の経過：以上の画像診断から、右室流出路および肺動脈起始部へ開口する左右の冠動脈瘻および左冠動脈瘻の約4 cm大の巨大瘤形成と診断した。今回の労作時の息切れの原因として冠動脈の盗血現象あるいは巨大瘤の冠動脈圧迫による虚血の関与も考え、診断目的で嚴重監視下に薬剤負荷心筋シンチグラフィーを施行したが、明らかな虚血を示唆する所見は認めなかった。治療として、今後巨大瘤の破裂の危険性も考慮して外科手術の適応と判断。心臓血管外科に転科とし、後日手術を施行した。

手術所見：胸骨正中切開でアプローチした。心膜液は正常で心膜の癒着は認めなかった。冠動脈が脂肪組織に埋没し直視困難であったため、人工心肺下で行った。主肺動脈の左側、左冠動脈前下行枝直上にはほぼ球状の約4 cm大の瘤を認めた。瘤壁は比較的柔らかく部分的に石灰化を伴っており、多数の蛇行した異常血管が主肺動脈基部および右室流出路に認められた (図7)。左冠動脈主幹部から前下行枝近位部を剥離露出したところ、左主幹部の終末部より径5 mmの静脈様の血管が分岐しており、瘤に流入していた。左主幹部からの分岐部を結紮、離断し、引き続いて瘤全体

を摘出した。さらに肺動脈基部への動脈瘻の剥離を進めたところ、肺動脈のバルサルバ洞にφ7 mmの開口を認めたため、これを剥離し直接縫合、閉鎖した。瘤内部に血栓は認めなかった。

一方、右冠動脈起始部からは1 cm前後の蛇行した異常血管が左冠動脈瘻と同様に肺動脈のバルサルバ洞と、一部は右室流出路にも開口しており、左側と同様に剥離し縫合閉鎖した。術中に左冠動脈造影を行い、左前下行枝に狭窄病変のないことを確認して手術を終了とした。人工心肺からの離脱は容易であった。

病理所見：摘出された瘤の大きさは40×42×40 mmであり、内膜は線維性肥厚やコレステリン裂隙を伴う粥腫、ならびに石灰化を伴う高度な粥状硬化の状態を呈し、真性動脈瘤に矛盾しない所見であった。

術後経過：術後経過は良好であり、心エコー検査、胸部造影CT等で異常のないことを確認して退院となった。現在は、高脂血症に対して薬物治療を行い外来通院中である。

考 察

冠動脈瘻は冠動脈の末梢の一部が先天的に心腔内や肺動脈などの本来と異なる部位に開口する走行異常であり、先天性心疾患の約0.2%-0.4%とされている¹⁾。以前はまれな疾患とされていたが、近年、心エコー検査や冠動脈造影検査で偶然に発見される機会が増えている。廣坂ら²⁾は冠動脈造影検査3,500例中の0.3%の頻度で発見されると報告している。また、桶家ら³⁾は2,349例中0.8%とし、冠動脈瘻の起始血管は左冠動脈65%、右冠動脈10%、両側冠動脈25%であり、その開口先の約80%は右心系、特に肺動脈に多いと報告している。大部分は無症状で経過するため、前にも述べたように心エコー検査などで偶然に発見されるか、あるいは心雑音の精査などで発見される場合が多い。症状として左→右シャントによる易疲労感などの心不全症状、シャント血流増大に伴う冠動脈の盗血現象による狭心症様症状、感染性心内膜炎などが出現することがある。また、瘻血管が瘤を形成し、瘤が破裂して心タンポナーデを発症することもけっしてまれではない。この瘤形成の機序としては、炎症、瘻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推測されている。これまでに瘤を形成した報告のまとめによると、圧倒的に閉経後の中年以上の女性に多いことから、動脈硬化の関与が裏付けられる。本症に

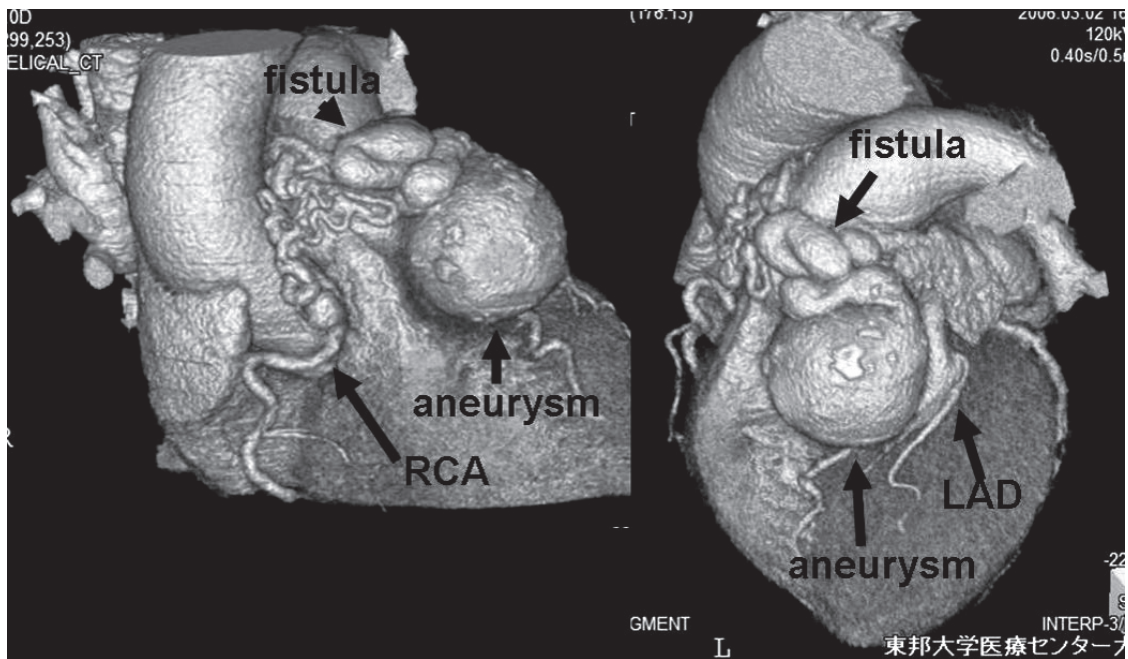


図5 胸部3DCT.

左前下降枝前方に巨大瘤とその周囲の蛇行した異常血管を認める。右冠動脈からも肺動脈起始部にかけて異常血管が観察される。

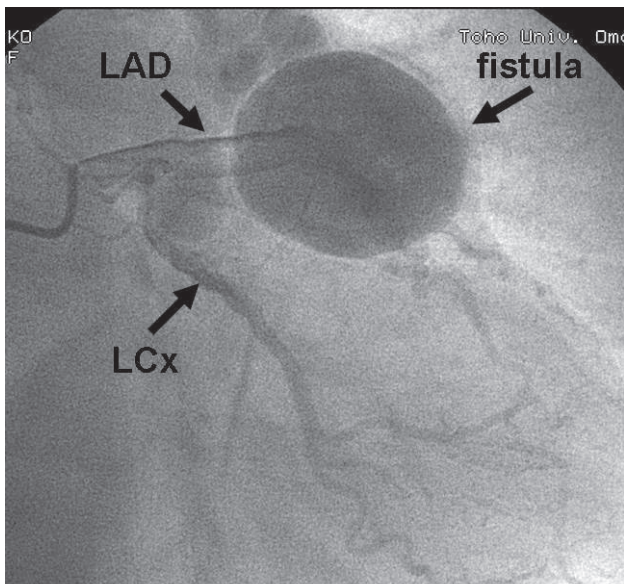


図6 左冠動脈造影.

左前下降枝から分岐する巨大動脈瘤を認める。

おいては、コントロール不良の高脂血症があり、また、瘤の組織所見からも高度な粥状硬化を認めたことから、動脈硬化が瘤形成に大きく関与しているものと考えられる。また、瘤径に関しては、1.5 cm程度のものから、大きいものでは

5 cm以上の巨大瘤の報告例⁴⁾もあり、その診断法も様々である。本症例では心エコー検査で左室前方に4.3×3.7 cm大の異常構造物を認め、カラードプラ法でこの異常構造物内に血流を認めたことから瘤の形成を強く疑った。さらに、胸部CTの3D画像では巨大瘤が明瞭に描出され、その診断および形態評価に3DCTは極めて有用であった。また、大きな瘤であるにもかかわらず、瘤内がほとんど血栓化しなかった理由としては、パルスドプラ法でも記録されたように、瘤内への流入血流が80 cm/sと比較的速い血流であったためと考えられる。

冠動脈瘤の治療として、以前は外科的治療としての瘻孔閉鎖術が唯一の治療法であったが、近年カテーテルを用いた経皮的塞栓術での治療も行われている。治療の適応として、Globelら⁵⁾は他の冠疾患予防のために無症状でも外科的治療をすべきであるという考えに対して、Jaffeら⁶⁾は外科的治療と保存療法で予後に差はないと述べている。

本邦では、1973年に今野らが外科的治療の適応として、1) 無症状でも左右シャント率が30%以上のもの、2) 心電図に虚血性変化が認められるもの、3) 肺高血圧または心不全の進行するもの、4) 細菌性心内膜炎の既往のあるもの、5) 瘻が瘤状となり破裂の危険性のあるもの、などを挙げている¹⁾。

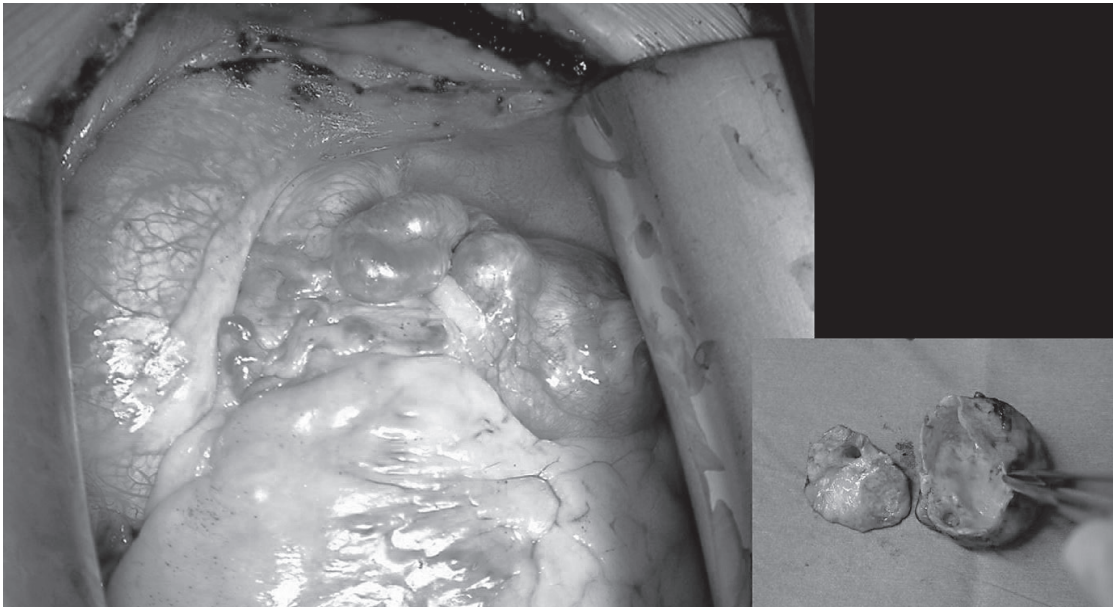


図7 巨大瘤と術中摘出標本.

特に、瘤を形成し破裂すると心タンポナーデとなり重篤化する場合が多いので、本症例においても破裂の危険性を考慮して手術適応と判断した。これまでの瘤破裂例の報告⁷⁻⁹⁾では瘤径が3-5 cmであるため、3 cm以上の瘤形成を認めた場合は積極的な外科治療の適応と考える。また、それ以下の大きさであっても破裂の危険性はあるので、CT検査などで瘤径を正確に評価し、もし増大傾向を認めるようであれば、コイル塞栓術¹⁰⁾や外科治療を行うことが望ましいと考える。

特に、冠動脈瘻に伴う瘤形成に関しては本症例のように、その診断、形態評価、経過観察に3DCTは有用であると思われる。今回、我々は心雑音の精査で偶然発見された巨大瘤を伴った冠動脈瘻の1例を経験し、破裂前に外科治療を行えたので報告した。

文 献

- 1) 今野草二, 遠藤真弘. 先天性冠動脈疾患. 呼と循 1973; 21: 397-402.
- 2) 廣坂朗, 相澤忠範. 巨大な瘻を伴い両側冠動脈から起始し肺動脈に流入する先天性冠動脈静脈瘻の一例. 循環器科 1990; 29: 90-95.
- 3) 桶家一恭, 水野清雄, 新田裕, 松原隆夫. 成人の先天性冠動脈静脈瘻の臨床像特に瘻血管の分岐形態とcoronary steal現象の関係について. 心臓 1994; 26: 1029-1037.
- 4) 河野純, 大久保信一, 山田博美. 冠動脈瘻12例の臨床的検討. 心臓 1985; 17: 1271-1277.
- 5) Globel FL, Anderson CF, Baltaxe HA. Shunt between the coronary and pulmonary arteries with normal origin of the coronary arteries. Am J Cardiol 1970; 256: 655-661.
- 6) Jaffe RB, Glancy DL, Fpstein SE, Brown BG, Morrow AG. Coronary arterial-right heart fistula. Long-term observations in seven patients. Circulation 1973; 47: 133-143.
- 7) 上山圭史, 富田重之, 竹原朗, 紙谷寛之, 向井恵一, 窪田彰一. 冠動脈瘤破裂による心タンポナーデに対して、緊急手術を行った冠動脈肺動脈瘻の1例. 胸部外科 2001; 54: 70-75.
- 8) 小鹿雅隆, 後藤智司, 山本和男, 井上秀範, 小熊文昭, 春谷重孝. 嚢状動脈瘤破裂をきたした両側冠動脈肺動脈瘻の1手術例. 胸部外科 1999; 52: 924-927.
- 9) 坂尾寿彦, 角岡信男, 中川博道, 梶原伸介. 冠動脈冠動脈静脈瘻に合併した嚢状動脈瘤破裂による心タンポナーデに対し緊急手術を施行した1例. 胸部外科 2000; 53: 684-686.
- 10) 我妻賢司, 山崎辰男, 谷口郁夫, 望月正武. 左前下降枝に狭窄病変を有する右冠動脈の冠動脈肺動脈瘻に対し経嚢骨アプローチにて一期的にステント植え込みおよびコイル塞栓術を施行した一症例. 冠疾患誌 2001; 7: 196-201.