

冠状動静脈瘻 9 例の検討

相澤 啓, 齊藤 力, 小西 宏明, 三澤 吉雄

1978年から2006年の間に当院で経験した冠状動静脈瘻は9例で、平均年齢44.7歳、男女比2:7であった。有症状症例は3例であった。3例で心房中隔欠損症の合併を認め、1例は虚血性の心電図変化を認めた。冠状動静脈瘻単独でシャント率が30%を越えるものは2例であった。5例に瘻血管の瘤化が見られた。手術は全例人工心肺使用、心停止下にて施行した。瘻血管結紮を行った症例は7例で2例は瘻血管の同定が不可能であった。4例は主肺動脈を切開し内腔より瘻血管を閉鎖した。瘻血管瘤切除を5例、心房中隔欠損閉鎖を3例、冠動脈結紮+瘻血管瘤切除、瘻血管起始部および開口部閉鎖+冠動脈バイパス術を1例、冠動脈および瘻血管起始部の結紮+瘻血管開口部パッチ閉鎖+冠動脈バイパス術を1例、動脈硬化性冠動脈狭窄による狭心症に対する冠動脈バイパス術を1例、三尖弁輪形成術を1例にそれぞれ併施した。

KEY WORDS: coronary artery fistula, operative indication, pulmonary arteriotomy, ligation

Aizawa K, Saitou T, Konishi H, Misawa Y: **Coronary artery fistula: report of 9 cases.** J Jpn Coron Assoc 2008; 14: 25-29

I. はじめに

冠状動静脈瘻は比較的まれな疾患であり、女性に多いといわれている。手術の適応となる症例は少ないが、盗血現象による胸痛を認める症例や、シャントによる心不全や肺高血圧発症例、瘻血管瘤合併症例などは手術の適応となる。瘻血管の起始部位、開口部位にさまざまなタイプがあることや、他の心疾患を合併していることもあり、症例により術式の検討が必要であることが多い。

当院では1978年から2006年の間に9例の冠状動脈瘻を経験した。その臨床的な特徴や術式について検討を行ったので、若干の文献的考察を加え報告する。

II. 対象および結果

1978~2006年間に9例の冠状動静脈瘻を経験した(表1)。年齢は15歳~72歳(平均44.7歳)で、男性2例、女性7例であった。9例中6例は無症状であり、症例1, 5, 9は心雑音、症例4, 7は心電図異常、症例8は膠原病の精査中に施行した心エコー検査で偶然冠状動静脈瘻を指摘されている。症例2, 3, 6は有症状であった。症例3は胸痛を認め心電図上でもST低下を認めたが、この症例の瘻血管は小さく、また、動脈硬化を原因とする冠動脈の狭窄病変を合併していた。このことから、胸痛症状はむしろ冠動脈の閉塞性病変に起因するものと考えられた。症例2, 6は労作時呼吸困難を主訴としていた。症例6は右冠動脈より右

房へ瘻血管が開口していた症例で、冠状動静脈瘻単独でシャント率51%を認め、呼吸困難など心不全の原因として考えられたが、症例2は瘻血管が小さく冠状動静脈瘻よりむしろ二次孔型心房中隔欠損(ASD)によるシャントの増加のため心不全症状が現れたものと考えられた。このため冠状動静脈瘻単独で症状が認められたのは症例6のみと考えられた(表2, 3)。

瘻血管の起始動脈としては左冠動脈からのものが3例、右冠動脈が3例、左右の冠動脈が3例で、起始動脈の比率に差は認められなかった。瘻血管の開口部位としては主肺動脈が7例で、2例は右房へ開口していた。右房へ開口した2例の起始動脈はいずれも右冠動脈であった。合併心疾患としては3例にASDを認めた。他に動脈硬化を原因とする冠動脈の狭窄合併症例を1例認めた。感染性心内膜炎(IE)を合併した症例は認められなかった。瘻血管瘤を合併した症例は5例であり大きさは1.5~5cmで平均は3.4cmで、破裂症例は認められなかった。症例5, 8, 9は主肺動脈への開口部で、症例1は右冠動脈の起始部でそれぞれ瘤を形成しており、症例6は右冠動脈より起始する瘻血管が瘤化し、右房に開口していた(図1, 表2)。5例でシャント率が30%を超えていたが、冠状動静脈瘻単独で30%を超える症例は症例1, 6の2例のみで、残りの3例はASDを合併していた。肺高血圧を合併した症例はなかった(表3)。

冠状動静脈瘻単独で手術適応と判断されたのは5例であり、症例1はシャント率増加と瘻血管瘤形成のため、症例6はシャント率増加と瘻血管瘤形成および心不全症状出現のため、症例5, 8, 9は瘻血管瘤のためそれぞれ手術適応と判断された。しかし残りの4例では瘻血管は細く、むしろ

自治医科大学外科学講座心臓血管外科部門(〒329-0498 下野市薬師寺3311-1)(本論文の要旨は第20回日本冠疾患学会学術集会, 2006年12月・東京にて発表した)
(2007.5.21 受付, 2007.8.20 受理)

表 1

症例	年齢	性別	症状	心雑音	心電図変化
1	23	女	なし	連続性	不明
2	48	女	労作時 呼吸困難	収縮期	右脚ブロック 右軸変位
3	58	男	胸痛	なし	II, III, aVfでST 低下
4	15	女	なし	収縮期	右脚ブロック 右軸変位
5	28	女	なし	連続性	QT延長
6	58	女	労作時 呼吸困難	収縮期	心房細動
7	36	女	なし	不明	I° 房室ブロック
8	64	男	なし	連続性	正常
9	72	女	なし	連続性	正常
平均 男：女 44.7 2：7					

表 2

症例	合併心疾患	起始動脈	開口部	瘻血管瘤	IEの既往
1	なし	RCA	RA	4.5cm, RCA 起始部	なし
2	ASD(II)	LAD	mPA	なし	なし
3	狭心症	LAD	mPA	なし	なし
4	ASD(II)	LAD, D1	mPA	なし	なし
5	なし	LAD, RCA	mPA	2cm, mPA 開口部	なし
6	なし	RCA	RA	1.5cm, 瘻血管の瘤	なし
7	ASD(II)	LAD, RCA	mPA	なし	なし
8	なし	RCA	mPA	4cm, mPA 開口部	なし
9	なし	OM, RCA	mPA	5cm, mPA 開口部	なし

ASD：心房中隔欠損症，RCA：右冠動脈，LAD：前下行枝，D1：第1対角枝，OM：鈍角枝，RA：右房，mPA：主肺動脈，IE：感染性心内膜炎

ろ合併心疾患のため手術適応と判断されており，症例2，4，7はASDのため，症例3は瘻血管とは無関係の動脈硬化性の冠動脈狭窄による狭心症のため手術適応と判断された。手術は全例人工心肺使用，心停止下にて手術を行った(表4)。症例1は右冠動脈起始部に45mm大の瘻血管瘤を認め，右冠動脈の末梢は瘻血管瘤より出ていた。このため瘻血管瘤切除，瘻血管起始部および開口部閉鎖に加え，冠

表 3 圧データ

症例	大動脈圧(mmHg)	肺動脈圧(mmHg)	シャント率
1	不明	不明	46%
2	124/70	37/10	49%
3	145/74	32/10	不明
4	120/75	38/10	61.50%
5	120/72	24/13	19%
6	91/43	28/13	51%
7	141/85	23/9	50.50%
8	98/65	19/9	17%
9	不明	不明	不明

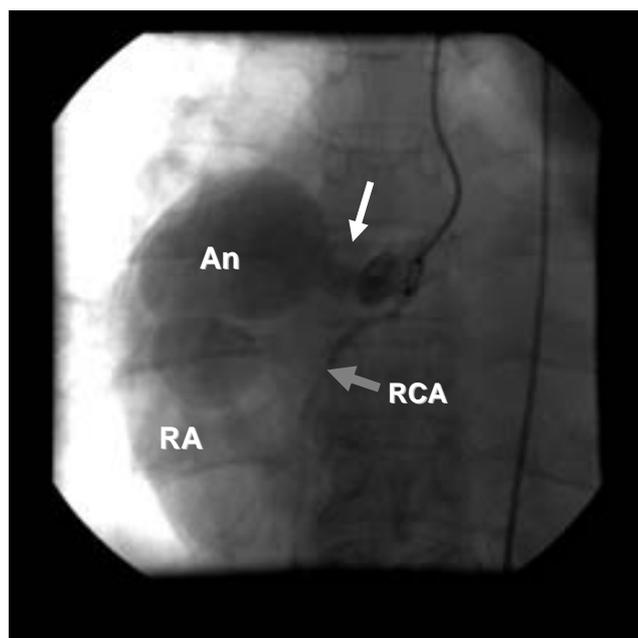


図1 右冠動脈(RCA)は瘻血管(白矢印)より起始しており，瘻血管は瘤(An)を形成し右房(RA)へ開口していた。

動脈の遠位側へのバイパス術(大伏在静脈使用)を行った。症例2は瘻血管が細く，術中に瘻血管の同定が不可能であった。このため主肺動脈切開を行って内腔より瘻血管の開口部を確認し，開口部の閉鎖のみ行った。またASD閉鎖を併施した。症例3は胸痛の原因が瘻に無関係の冠動脈狭窄による狭心症と考えられ冠動脈バイパス手術(大伏在静脈-前下行枝)を施行したが，瘻血管は前下行枝から肺動脈へ細い1本のみで結紮処理が可能であったため肺動脈切開は行わなかった。

症例4は心表面から瘻血管の同定が困難であり，主肺動脈切開を行い内腔より確認を行ったが，肺動脈弁のバルサルバ洞付近でわずかに血液が滲む程度で明らかな瘻血管の同定はできなかったため結果的に瘻血管の結紮は行えず，

表4 術式

症例	瘻血管結紮	主肺動脈切開	併施手術
1	あり	なし	CABG(SV-RCA) 瘤切除
2	なし	あり	ASD 閉鎖
3	あり	なし	CABG(SV-LAD)
4	なし	あり	ASD 閉鎖
5	あり	あり	瘤切除
6	あり	なし	CABG(SV-RCA)+ 開口部パッチ閉鎖+TAP
7	あり	あり	ASD 閉鎖
8	あり	なし	瘤切除
9	あり	なし	瘤切除

CABG: 冠動脈バイパス術, SV: 大伏在静脈, RCA: 右冠動脈, LAD: 前下行枝, ASD: 心房中隔欠損症, TAP: 三尖弁輪形成術

ASDの閉鎖のみで手術を終了した。症例5は瘻血管の結紮を行ったが、数本以上認められ、さらに主肺動脈前面で瘻血管瘤を形成していたため瘻血管瘤切除と、主肺動脈を切開して内腔より瘻血管の開口部閉鎖を行った。症例6は右冠動脈が瘤化した瘻血管より発生し右房へ開口していたため、右冠動脈および瘻血管の結紮、右房への開口部パッチ閉鎖に加え、結紮した右冠動脈の遠位側へのバイパス手術を必要とした。また、高度の三尖弁閉鎖不全を認めていたため三尖弁輪形成も併施した。症例7はASD閉鎖に加え瘻血管の結紮を行ったが、瘻血管は細く数本あり全てを結紮することは不可能と考えられたため主肺動脈を切開

し、内腔より瘻血管の開口部を閉鎖した。症例8は瘻血管が1本で、右冠動脈の起始部位での瘻血管の処理および、右室前面での結紮処理が可能であった。また、肺動脈前面で瘻血管瘤を形成していたが、瘻血管瘤内腔より開口部の閉鎖が可能であったため、肺動脈の切開は行わなかった(図2)。症例9では瘻血管は複数本認められたが、非常に細く血行動態に影響がないと判断され、さらに瘻血管瘤内より開口部の閉鎖が可能であったため瘻血管は可及的な結紮に留め肺動脈切開は行わなかった。

全例術後合併症なく軽快退院しているが、症例6は遠隔期に僧帽弁閉鎖不全のため僧帽弁置換を必要とした。

III. 考 察

冠状動静脈瘻は比較的まれな疾患であり心臓カテーテル検査症例の約0.1~2%に見られ¹⁻³⁾、先天性心疾患の約0.04~0.1%を占めるといわれている^{4,5)}。文献的にはやや女性に多い傾向が見られ⁶⁻⁸⁾、当院でも男性2例、女性7例と女性に多い傾向を認めた。発生の機序としては胎生初期の心外膜血管網と心筋内類洞が交通し、心筋内類洞が残存することにより形成されるとする説や、肺動脈に瘻血管が開口している症例では肺動脈から発生した冠動脈が正常冠動脈と交通して成立するとする説、vasa vasorumが成長し瘻血管となる説などさまざまであり、正確なところは不明である^{2,4,5,7-9)}。

当院では冠状動静脈瘻単独での有症状症例は1例のみであったが、約半数に症状を認めるといわれており、有症状症例では瘻血管による盗血現象に伴う胸痛発作やシャントの増加による心不全症状、繰り返す上気道炎などが挙げられる^{2-6,7-9)}。冠状動静脈瘻は他の先天性心疾患(心内奇形)

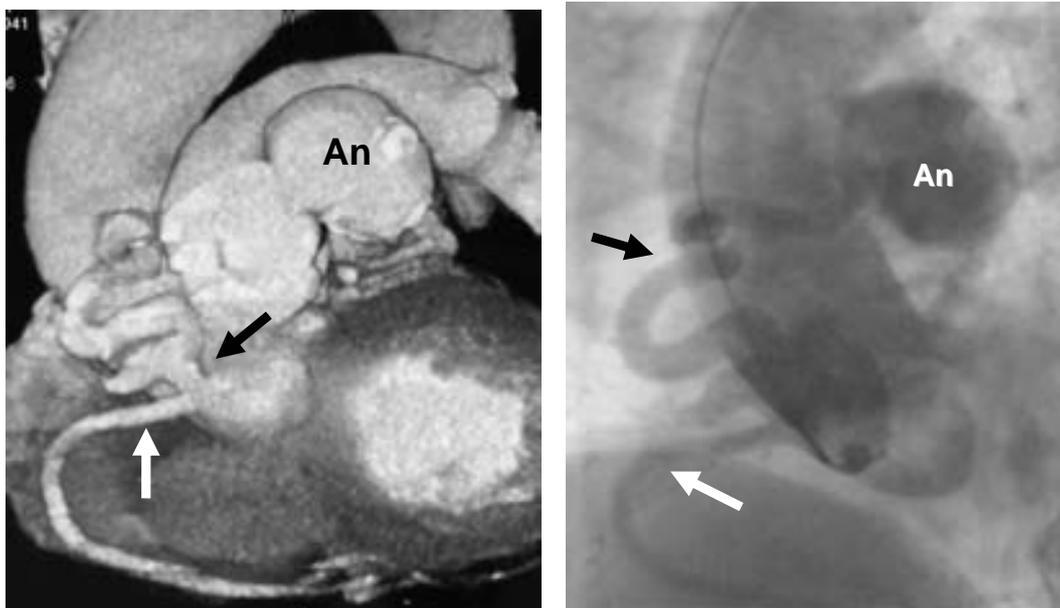


図2 瘻血管(黒矢印)は右冠動脈より起始しており、主肺動脈へ交通していた。主肺動脈への開口部位で瘤(An)を形成していた。白矢印: 右冠動脈

を合併することも知られており、心室中隔欠損症、心房中隔欠損症、Fallot 四徴症などを合併した症例が報告されている⁶⁻⁸⁾。当院では3例にASD(II)の合併が認められたが、福田らが行った集計によると本邦では肺動脈に開口している冠動脈静脈瘻53例中5例に先天性心疾患を認めたと報告しており、動脈管開存症が最も多かったとしている⁸⁾。他にIEを合併することも報告されている^{1,2,6,7)}。瘻血管の起始動脈は当院の症例では左右冠動脈による差は認められなかったが、諸家の報告では多少の差は認めるが、右冠動脈由来が多い傾向が見られ、開口部位については右室に開口しているものが多いとされ、続いて右房、肺動脈が続いている^{6,7,10-12)}(表5,表6)。冠動脈瘤の合併率は20%前後(約19~23%)といわれ、破裂症例の報告もある^{2,3,5,6,8)}。冠動脈静脈瘻の手術適応としては、将来的な冠動脈疾患や感染性心内膜炎の予防として診断のついた時点で手術を勧める意見もあるが^{6,9)}、経過中に瘻血管の自然閉鎖を認めた例や、長期の経過観察で血行動態に変化が見られなかったとの報告もあり、適応を考慮するべきであろうと考えられる^{1-5,7,8)}。本邦では、今野らが報告した冠動脈静脈瘻の手術適応として⁷⁾、①シャント率30%以上、②心電図で虚血性変化が認められるもの、③肺高血圧、心不全兆候の出現が認められるもの、④細菌性心内膜炎の既往があるもの、⑤動脈瘤(瘻血管瘤)の破裂の危険あるもの、が普及している。一般的に知られている術式としては、a.冠動脈結

紮、b.選択的な瘻血管の結紮、c.冠動脈の長軸方向に沿ってマットレス縫合により瘻血管の開口部を閉鎖、d.心腔内からの瘻孔閉鎖、e.冠動脈を切開し冠血管内腔より瘻孔を閉鎖する方法、f.冠動脈バイパス術を併用、g.瘻血管瘤切除、などが挙げられる^{1,2,4,5,11)}。

a.冠動脈結紮は症例1,6に対して行っているが、これは両症例とも冠動脈が瘻血管より出ていたためであり、心筋虚血を防ぐためf.冠動脈バイパス術を必要とした。b.選択的な瘻血管の結紮は症例1,6,8のように瘻血管が1本または全て同定可能で、結紮できれば有効な手段と考えられるが、他の症例のように瘻血管が複数本あり全ての結紮が不可能と考えられた場合には、症例2,4,5,7のように主肺動脈を切開し内腔より開口部位を確認するd.の手技を加えることが必要である。c.,e.の手技は当院の症例では経験がなかったが、それぞれ冠動脈の損傷、狭窄を引き起こす可能性もあり、慎重な適応が求められると考えられる。瘻血管瘤は破裂の報告もあることから原則として切除が必要である。手術的な治療のほかにArmsbyらはカテーテルによる冠動脈静脈瘻の閉鎖の有用性を報告している。そのなかで開口部が多いもの、瘻血管の蛇行が強いもの、心内血管腫を合併していたものを手術的に閉鎖したと報告している¹²⁾が当院ではいずれの症例も他の心疾患を合併しているか、冠動脈瘤を形成していたため手術的な治療が必要であると判断した。このように実際の手術に際しては冠動脈静脈瘻には瘻血管の起始部、開口部、瘻血管瘤の合併など様々なタイプがあり、当院での経験からも症例ごとに術式の検討が必要であると考えられた。

表5 起始動脈

	今野ら	Oldham ら	Levinら	Rossら	Laurieら
左冠動脈	4	70	151	52	20
右冠動脈	16	110	181	56	10
左右冠動脈	1	10	19	—*	2
不明	1	4	12	0	0
その他	1	6	0	0	1

*: 左右の分類のみ

表6 開口部位

	今野ら	Oldham ら	Levinら	Rossら	Laurieら
右房	3	66	94	21	10
右室	14	78	150	44	11
肺動脈	4	39	63	31	3
左房	0	12	18	0	1
左室	1	5	11	2	1
その他	0	0	27	6	7
不明	2	0	0	0	0

文 献

- 1) 花正 裕, 塩野元美, 折目由紀彦, 畑 博明, 八木進也, 瀬在幸安: 感染性心内膜炎を契機に発症した両側冠動脈-右房瘻の1治験例. 日胸外会誌 1998; **46**: 1349-1353
- 2) 豊田吉哉, 山口真弘, 大嶋義博, 芳村直樹, 田中常雄, 岡成光, 村上博久, 小川恭一: 術後の心筋梗塞を併発した右冠動脈右房瘻の1例. 胸部外科 1999; **52**: 326-331
- 3) Kinoshita O, Ogiwara F, Hanaoka T, Tomita T, Yokozeki O, Kai R, Uchikawa S, Kogashi K, Tsutsumi H, Imamura H, Yazaki Y, Ikeda U, Hongo M, Kudo K: Large saccular aneurysm in a coronary arterial fistula. A case report. Angiology 2005; **56**: 233-235
- 4) 石川和徳, 星野俊一, 緑川博文, 小川智弘, 佐藤晃一: 胸痛を伴った冠動脈肺動脈瘻の1治験例. 日心外会誌 2002; **31**: 187-190
- 5) Gandy LK, Rebeiz GA, Wang A, Jaggars JJ: Left main coronary artery-to-pulmonary artery fistula with severe aneurysmal dilatation. Ann Thorac Surg 2004; **77**: 1081-1083
- 6) Oldham NH, Ebert AP, Young GW, Sabison CD: Surgical management of congenital coronary artery fistula. Ann Thorac Surg 1971; **12**: 501-513
- 7) 今野草二, 遠藤真弘: 先天性冠動脈疾患. 呼吸と循環 1973; **21**: 397-409
- 8) 福田恵一, 半田俊之介, 谷 正人, 大西祥平, 細川美千代, 小島昌治, 藤井 効, 中村芳郎, 内藤千秋, 相馬康

- 弘, 井上 正: 先天性冠動脈肺動脈瘻の3例. 心臓 1985; **17**: 1271-1277
- 9) Gobel LF, Anderson FC, Baltaxe AH, Amplatz K, Wang Y: Shunts between the coronary and pulmonary arteries with normal origin of the coronary arteries. Am J Cardiol 1970; **25**: 655-661
- 10) Levin CD, Fellows KE, Abrams LH: Hemodynamically significant primary anomalis of the coronary arteries. Circulation 1978; **58**: 25-34
- 11) Reul RM, Cooley DA, Hallman GL, Reul GJ: Surgical treatment of coronary artery anomalies. Tex Heart Inst J 2002; **29**: 299-307
- 12) Armsby LR, Keane JF, Sherwood MC, Forbess JM, Perry SB, Lock JE: Management of coronary artery fistulae. J Am Coll Cardiol 2002; **39**: 1026-1032