

■ 症例報告 ■

Amplatzer Vascular Plug IIで閉鎖した右冠動脈左室瘻の一例

加藤 昭生, 野木森 宜嗣, 佐藤 一寿, 北川 陽介, 若宮 卓也, 小野 晋, 金 基成, 柳 貞光, 上田 秀明

Occlusion of a Coronary Artery Fistula Using Amplatzer Vascular Plug II in a 1-Year-Old Girl

Akio Kato, Yoshitsugu Nogimori, Kazuhisa Sato, Yosuke Kitagawa, Takuya Wakamiya, Shin Ono, Ki-Song Kim, Sadamitsu Yanagi, and Hideaki Ueda

doi: 10.20599/jpic.4.6

■ 要約 ■ 冠動脈瘻 (Coronary Artery Fistula: CAF) の中で稀な右冠動脈左室瘻に対し、経皮的閉鎖栓留置を行った初めての症例を報告する。症例は1歳9ヶ月女児で、巨大な右冠動脈左室瘻を有していた。冠動脈computed tomography (CT) 及び造影心臓カテーテル検査上、右冠動脈は大動脈起始部より拡張し、本来の冠動脈域を灌流した後に左室へと交通を認めた。形態からカテーテル治療が可能と判断した。まず片側大腿動脈 (Femoral Artery: FA) から右冠動脈-左室-大動脈へとガイドワイヤーを通し、対側FAからスネアで把持し引き抜き、ループを形成した。次にウエッジバーマンカテーテルを用い閉塞試験を繰り返しながら、虚血を来さない至適なデバイス留置位置を選定し、デバイス留置を行った。幼児例の冠動脈心室瘻に対するカテーテル治療の報告は少ない。侵襲が少ないため、症例によっては手術治療の代替となりうる。

■ Abstract ■ We report the first case of catheter closure using Amplatzer vascular plug device for the coronary artery fistula (CAF); draining from the right coronary artery (RCA) into the left ventricle (LV), quite rare pattern among (CAF). A 1-year old girl had a giant right coronary artery – left ventricular fistula. The angiographic computed tomography of coronary artery and the catheter examination showed a dilated RCA from the orifice, feeding the original coronary artery's region and drained into the LV. Catheter treatment was judged as possible from its anatomy. We inserted a guide wire from the right femoral artery (FA) to RCA-LV-aorta, and grabbed it out with a snare catheter from the left FA to make a loop of guide wire. Occlusion tests were performed repeatedly using balloon to avoid ischemia. The optimal device position was selected cautiously and was detached.

A few cases of catheter device closure of CAF had been reported in infancy. Because of its technical advance, the transcatheter closure of CAF has low mortality rate, shows rapid recovery, and can be an alternative option to surgical treatment in infant cases.

■ Key words ■ coronary artery fistula, transcatheter device closure, coronary cameral fistula, Amplatzer vascular plug

はじめに

冠動脈瘻 (Coronary Artery Fistula: CAF) は、冠動脈が近接する心血管腔に直接開口する異常で、先天性心疾患の0.3%に合併すると言われている¹⁾。異常開口する冠動脈は、右冠動脈 (52%)、左冠動脈 (43%) の順に多く²⁾、流入する部位は右心系に多く、右室 (40%)、右房 (25%)、肺動脈 (20%) の順とされる³⁾。CAFの治療は、従来外科的治療が第一選択であったが、近年カテーテル

閉鎖栓を用いた治療報告例が散見される。今回CAFでも稀な右冠動脈左室瘻に対して、Amplatzer Vascular Plug II (AVP II, St. Jude Medical, Saint Paul, MN) を用い、カテーテル閉鎖を行った初めての症例を報告する。

症 例

1歳9ヶ月女児。在胎41週1日2832gで仮死なく近医で出生し、出生後の心雑音を契機に右冠動脈左室瘻と診断された。前医で利尿剤と抗血小板内服を開始され、経過

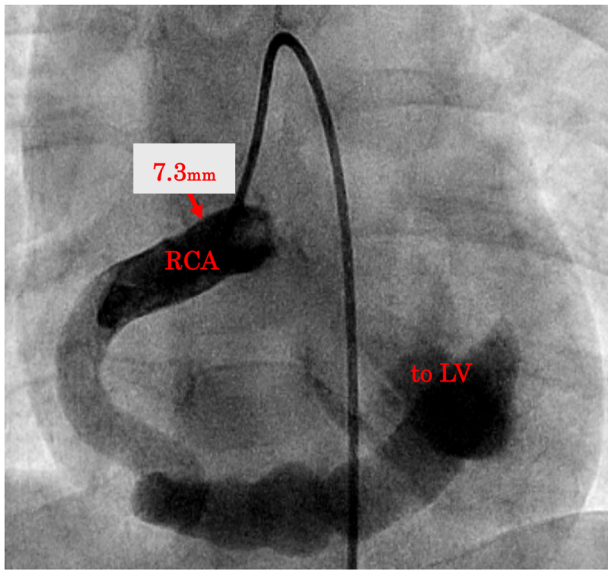


Fig. 1a Angiography of RCA revealed coronary artery fistula (RCA to LV).RCA is highly dilated

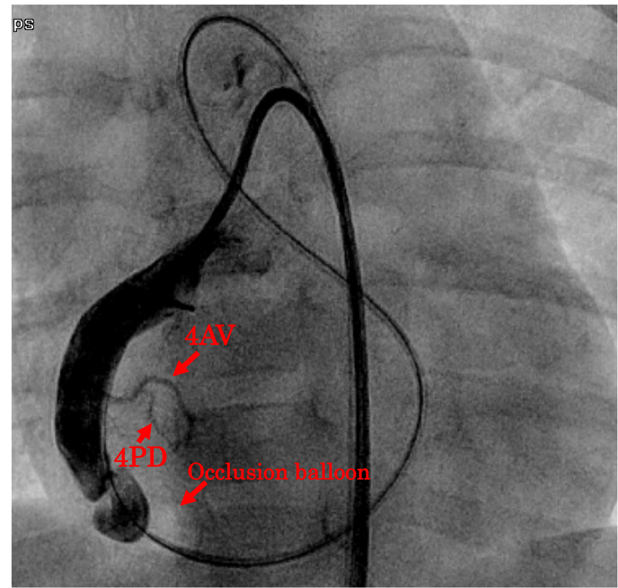


Fig. 1c Identification of normal RCA (4AV and 4PD) position by balloon occlusion

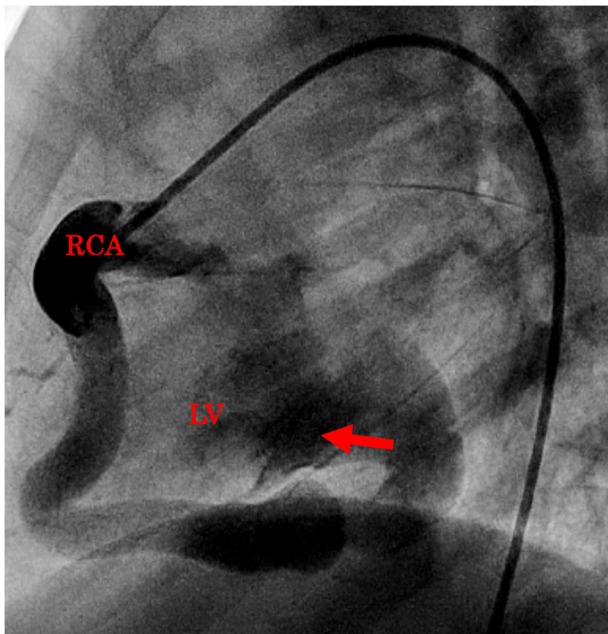


Fig. 1b Lateral view of RCA angiography revealed drainage to LV

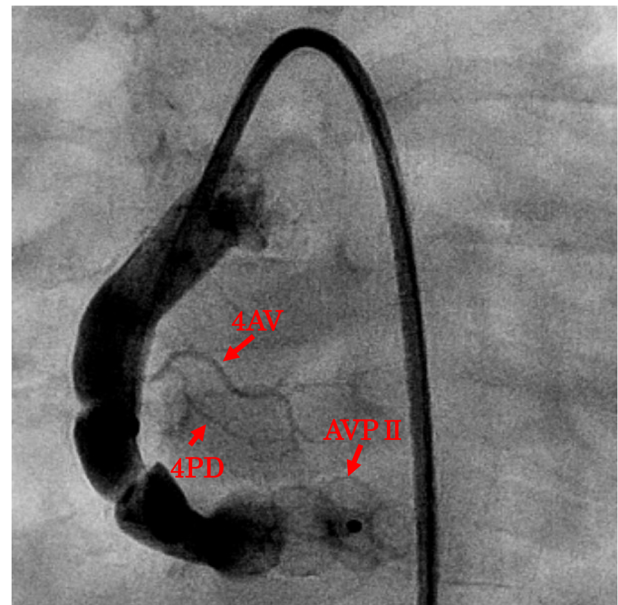


Fig. 1d Repeated angiography from guiding sheath, confirming the optimal implantation site. Just uncovered the AVP II

中に心不全兆候や狭心症症状の出現はなく、1歳3ヶ月時に心臓カテーテル検査及び造影CT検査を施行された。右冠動脈は起始部から著明に拡張し（7.3mm）、正常冠動脈域を栄養した後左室の僧帽弁近位に開口していた。限局的な狭窄は認めず、6-10mm径で連続し、左室開口部は12.5mmであった。左冠動脈には異常を認めなかった。左室拡張末期容積は50mL（239% of Normal）と著明な拡大を認め、治療適応と判断された。

カテーテル塞栓目的に当院紹介となり、1歳9ヶ月時にカテーテル塞栓を施行した。治療時の身長81.7cm、体重

10.7kgであった。バイタルは脈拍98回/分、呼吸数24回/分、血圧98/50mmHg、SpO₂ 95%（室内気）であり、心音ではIII音・IV音は認めず、第三肋間胸骨右縁で拡張期雑音をLevine I/VI聴取した。

カテーテルでは、右冠動脈造影後（Fig. 1a, 1b）に、当初はcoilでの閉鎖も考慮に入れたため、flow stop methodを施行できるようにA-Aループを作成することとした。そこでまず、右大腿動脈（Femoral Artery: FA）より4Frジャドキンス・右冠動脈型カテーテル（JR）にマイクロカテー

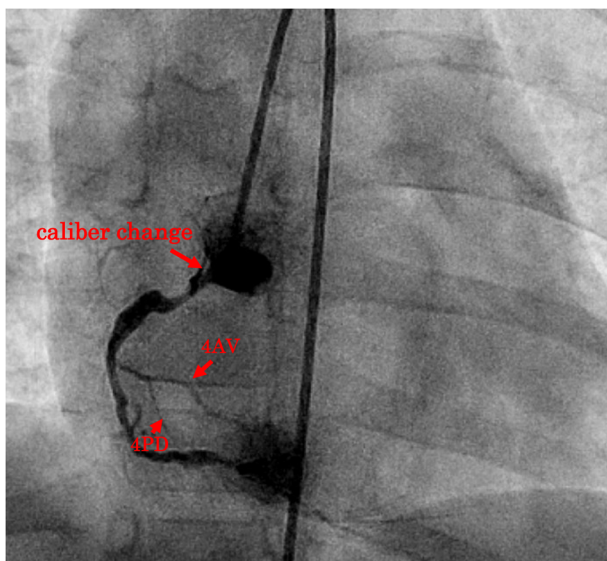


Fig. 2 Angiography of RCA which was performed 1 year after AMPLATZER™ VASCULAR PLUG implantation. Apparent caliber change was observed near the orifice of RCA

テル（レオニスムーバ、住友ベークライト株式会社、東京）を通し、右冠動脈RCA-左室LV-大動脈AoとThruwayガイドワイヤー（Boston Scientific; Marlborough, MA）を通過させた。次に対側の左FAから挿入したスネアカテーテル（アンブラツグースネックスネア、10mm loop, 4Fr, Ev3 inc, Plymouth, MN）で、ガイドワイヤーの先端を把持し、シースより引き出し、ガイドワイヤーのループを確保した。続いて、対側から引き出したガイドワイヤーに沿って4FrウエッジバーマンカテーテルをAo-LV-RCAの順に進め、塞栓予定部位でバルーン閉鎖試験を繰り返し行い、ST変化などの心電図上の変化を来さないことを確認した。また右冠動脈造影で、RCAの正常枝、特に右後下行枝（4PD）領域の末梢側を確認した（Fig. 1c）。房室枝（AV）や4PDより遠位で左室内に閉栓が突出しない部位を塞栓予定部位とした。塞栓予定部位の最大血管径は6.8mmであった。この時点で、AVP IIでの塞栓の方針とした。

右FAのショートシースを抜去し、ガイドワイヤー越しに5Frアンセルガイディングシース2番（Cook Japan、東京）を右冠動脈の塞栓部位遠位端まで順行性に進めた。ガイディングシース内に外径10mm長さ7mmのAVP IIを通し、塞栓部位まで進行させた。ガイディングシースより造影を繰り返し、至適な塞栓部位を同定後、ガイディングシースを引いて露出させ、AVP IIを留置した（Fig. 1d）。デタッチ前に再度造影で正常冠動脈血流を阻害していないこと、心電図変化を来していないことを確認した。また経胸壁心臓超音波検査で僧帽弁逆流や狭窄が無いことを確認し、AVP IIを留置した。留置後の造影で、残存短絡はごくわずかで、手技を終了とした。

治療後から抗血小板薬と抗凝固薬内服を開始した。ま

た、経胸壁心臓超音波にて残存短絡は認めなかったが心嚢水の貯留と左室収縮の軽度低下を認め、利尿剤と血管拡張薬の内服を開始した。心嚢水の増加がないことから術後7日目に退院した。心嚢水は術後4ヶ月時に消失した。

瘻孔閉鎖1年5ヶ月後に造影カテーテル検査を施行し、CAFの閉鎖を確認した。RCAは起始部に口径差を認め、血管径は1.6mm程度であったが閉塞はなく、左右心室収縮様式にasynergyも認めなかった（Fig. 2）。抗血小板薬と抗凝固薬は継続とし、経過観察中である。

考 察

CAFは先天性心疾患の0.3%に合併する稀な疾患で、一般人口あたりおよそ0.002%の頻度と推定されている⁴⁾。中でも右冠動脈左室瘻はCAFの0.3%と更に稀である⁵⁾。血行動態としては大動脈閉鎖不全に類似することから左心容量負荷による心不全症状を来す場合や冠動脈の盗血現象 coronary stealによる狭心症状を呈することもあるが、本症例のように利尿剤の内服を要したものの無症状の症例も認められる。

冠動脈瘻の治療適応は、成人においては今野ら⁶⁾の基準が提唱されている。すなわち、(1)現在症状がなくても短絡量が30%以上のもの、(2)心電図に虚血性変化及び負荷の徴候が認められるもの、(3)細菌性心内膜炎の既往があるもの、(4)うっ血性心不全の進行が予想されるもの、(5)形態的に冠動脈が瘤状形成を認め、破裂の危険が考えられるもの、(6)心雑音が著しく、社会的に不利なものである。

冠動脈瘻の治療は、従来外科治療が主流とされてきたが、近年カテーテル治療の有効性が確立され、報告例も散見される。

カテーテル治療の最初の報告は、1983年のReidyらによるdetachable balloonを用いたもの⁷⁾で、以降はコイル⁸⁾やumbrella devices⁸⁾、カバードステント covered stent⁹⁾、Amplatzer Duct Occluder (ADO, Abbott, Chicago, IL)¹⁰⁾など、様々なデバイスを用いた報告がみられる。近年では、カテーテル治療における残存シャントの割合、致死率や合併症頻度などは外科治療と同等といわれる¹¹⁾。

カテーテル治療は、手技的な習熟に時間がかかることや、閉鎖部より遠位部で血栓や血管解離を起こすこと、デバイスの脱落のリスクが問題となるが¹¹⁾、その一方で、胸骨正中切開や人工心肺が不要で低侵襲である為、回復時間の短縮が望め、また低コストであることが利点とされる¹²⁾。

中でもAVP IIの有用性が近年注目されている（Fig. 3）。AVP IIは、他のデバイスに比し、特に有利な点を3つ有する。まず、デバイスそのもののサイズが大きいことで、より大きい血管に対してより少ない数のデバイスで効率的に閉鎖が望める^{12,13)}ことと、3面を有することで確実な止血

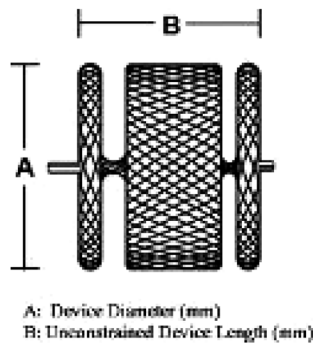


Fig. 3 Amplatzer Vascular Plug II (AVP II, St. Jude Medical, Saint Paul, MN)

が期待できるため、より短時間、低コストでの治療が期待できる。また、AVP IIではデタッチ直前まで造影が可能であるため、位置の微調整が可能で、正常冠動脈や開口部との位置関係の把握が容易で、coilに比較し選択的に安全な留置が行うことが可能である¹²⁾。さらに、使用するシースが他のアンブラツツァファミリーデバイス(ADO等)と比して小さいこと¹⁴⁾から、体格が小さい児に対しても治療が可能である。以上の点から、AVP IIは特に大きいCAFの閉鎖に有効で手術の代替治療の選択肢のひとつと考えられる。

用いるAVPのデバイスサイズに関して、最小血管径の175–200%を推奨する報告例もあれば^{15,16)}、130–150%で少量の残存シャントがあっても後に閉鎖が十分期待できるとの報告もある^{13,17)}。本症例では、シャント血管径は6.8mmと大きく、coilではなくAVPの適応と考え、血管径の約150%のサイズ選択を行った。10kg台と小さな体格であり、角度としてもLV側からのアプローチが困難と予想されたため、順行性による閉鎖を選択した。また閉鎖デバイスに関しては、巨大冠動脈瘻に対する、より確実な止血を優先させAVP IIを選択した。結果的に閉鎖栓の留置後、良好な閉鎖を得ている。

冠動脈瘻の治療後管理としては、外科治療後に冠動脈閉塞例も経験することから、抗凝固薬投与と定期的な冠動脈造影検査が必要と考えられている。

治療後の抗凝固について薬剤の種類や量、投与期間に関しては決まった見解はないが、特にカテーテル治療後では、術前的高速かつ多量の血流によるshear stressが原因の内膜損傷や瘻孔閉鎖による血流のうっ滞のため、拡張した冠動脈内に血栓を形成するリスクを有することから、術後は長期にわたり抗凝固療法が必要とされる¹⁸⁾。

また、患側冠動脈の術後閉鎖例でも、健側冠動脈からの側副血行により心筋が灌流されることで、明らかな虚血症状を伴わない症例¹⁹⁾もみられる為、無症状例においても定期的な冠動脈造影や心筋シンチグラフィ等の検査によって患部冠動脈狭窄の検索が必須と考えられている。

本症例においても、術直後から抗血小板薬および抗凝固

薬内服を継続し、1年後のフォローでは正常冠動脈の閉塞はないものの、右冠動脈の起始部の口径差を認め、狭窄病変の可能性も否定できず、内服は継続としたままの定期フォローを計画している。また、本症例では術後に心嚢水と左室収縮の軽度低下を認めた。デバイス留置による炎症性の病態を考え、アスピリン、利尿剤、血管拡張薬を開始し速やかな改善を得た。

結 語

右冠動脈左室瘻に対してAVPによる閉鎖を行った初めての症例を経験した。CAFに対するAVP閉鎖栓留置は、閉鎖栓の中でも安全に確実に瘻閉鎖を達成することが可能であり、冠動脈左室瘻においても、症例によっては外科的治療に変わる治療法となりうる。

引用文献

- 1) McNamara JJ, Gross RE: Congenital coronary artery fistula. *Surgery* 1969; 65: 59–69
- 2) Levin DC, Fellows KE, Abrams HL: Hemodynamically significant primary anomalies of the coronary arteries angiographic aspects. *Circulation* 1978; 58: 25–34
- 3) Lowe JE, Oldham HN Jr., Sabiston DC Jr.: Surgical management of congenital coronary artery fistulas. *Ann Surg* 1981; 194: 373–380
- 4) Luo L, Kebede S, Wu S, et al: Coronary artery fistulae. *Am J Med Sci* 2006; 332: 79–84
- 5) Zheng J, Dong R, Liu T, et al: Giant right coronary artery aneurysm with a fistula to the left ventricle. *Ann Thorac Surg* 2012; 94: 149–150
- 6) 今野草二, 遠藤真弘: 先天性冠状動脈疾患. *呼吸と循環* 1973; 21: 397–409
- 7) Reidy JF, Sowton E, Ross DN: Transcatheter occlusion of coronary to bronchial anastomosis by detachable balloon combined with coronary angioplasty at same procedure. *Br Heart J* 1983; 49: 284–287
- 8) Perry SB, Rome J, Keane JF, et al: Transcatheter closure of coronary artery fistulas. *J Am Coll Cardiol* 1992; 20: 205–209
- 9) Mullasari AS, Umesan CV, Kumar KJ: Transcatheter closure of coronary artery to pulmonary artery fistula using covered stents. *Heart* 2002; 87: 60
- 10) Al-Ata J, Amin M, Galal MO, et al: Transcatheter occlusion of a large left coronary artery to right superior vena cava fistula using the Amplatzer duct occlude device. *Pediatr Cardiol* 2004; 25: 70–72
- 11) Armsby LR, Keane JF, Sherwood MC, et al: Management of coronary artery fistulae. Patient selection and results of transcatheter closure. *J Am Coll Cardiol* 2002; 39: 1026–1032
- 12) Yadav A, Buxi TB, Jayamma SS, et al: Coronary cameral fistula treated by the Amplatzer vascular plug. *Jpn J Radiol* 2014; 32: 608–612
- 13) Liang CD, Ko SF, Lin YJ, et al: Transcatheter closure of a left circumflex coronary artery fistula in two children using the Amplatzer vascular plug. *Pediatr Cardiol* 2009; 30: 1172–1175

- 14) Wiegand G, Sieverding L, Kaulitz R, et al: Transarterial and transvenous approach for transcatheter closure of a large coronary artery fistula with the Amplatzer vascular plug. *Pediatr Cardiol* 2009; 30: 172–175
- 15) Fischer G, Apostolopoulou SC, Rammos S, et al: Transcatheter closure of coronary arterial fistulas using the new Amplatzer vascular plug. *Cardiol Young* 2007; 17: 283–287
- 16) Kassaian SE, Alidoosti M, Sadeghian H, et al: Transcatheter closure of a coronary fistula with an Amplatzer vascular plug: should a retrograde approach be standard? *Tex Heart Inst J* 2008; 35: 58–61
- 17) Balaguru D, Joseph A, Kimmelstiel C: Occlusion of a large coronary-cameral fistula using the Amplatzer vascular plug in a 2-year old. *Catheter Cardiovasc Interv* 2006; 67: 942–946
- 18) 松裏裕行, 加藤摩耶, 星田 宏, ほか: Symbas法によるろう孔閉鎖術後に興味深い冠動脈造影所見を呈した先天性右冠動脈左室瘻の1男児例. *心臓* 1999; 31: 735–740
- 19) 門間和夫, 高尾篤良, 今井康晴: 手術後遠隔期に血栓性閉塞を生じた先天性冠動静脈瘻の1例. *心臓* 1988; 20: 727–732