

Wrodzone przetoki wieńcowe u dzieci — doświadczenia własne

Congenital coronary fistulas in children — single centre experience

Maciej Chojnicki, Janina Aleszewicz-Baranowska, Jan Ereciński i Robert Sabiniewicz

Klinika Kardiologii Dziecięcej i Wad Wrodzonych Serca Akademii Medycznej w Gdańsku

Abstract

A coronary fistula is a rare congenital anomaly, connecting coronary artery directly with cardiac chamber, pulmonary artery, pulmonary veins, superior vena cava or coronary sinus. Coronary fistulas occur in approximately 0.002% of the population. Most of coronary fistulas are isolated, but they may coexist with other congenital heart anomalies such as pulmonary atresia with intact septum or hypoplastic left heart syndrome. Indications to coronary fistulas' treatment are not clearly established. Elective closure even in asymptomatic or treatment of only symptomatic patients have been recommended. (Folia Cardiol. 2006; 13: 89–92)

coronary artery fistula, surgical treatment, interventional treatment

Opis przypadków

W Klinice Kardiologii Dziecięcej i Wad Wrodzonych Serca Akademii Medycznej w Gdańsku w okresie od stycznia do maja 2005 r. zdiagnozowano 3 pacjentów z przetokami wieńcowymi. We wszystkich przypadkach przetoka łączyła lewą tętnicę wieńcową lub jej gałąź z tętnicą płucną.

Pacjentów w wieku 2–13 lat skierowano z powodu szmeru nad sercem do poradni kardiologicznej, gdzie przeprowadzono ambulatoryjnie diagnostykę kardiologiczną (badanie podmiotowe, przedmiotowe, echokardiograficzne, EKG i RTG klatki piersiowej). W badaniu przedmiotowym stwierdzono cichy szmer skurczowy nad podstawą serca (1–2/6). Nie zaobserwowano innych nieprawidłowości. Zapis EKG we wszystkich przypadkach był

prawidłowy. W badaniach echokardiograficznych u 1 pacjenta rozpoznano przetrwały przewód tętniczy, a u pozostałych 2 osób rejestrowano trudny do interpretacji, nietypowy skurczowo-rozkurczowy napływ do tętnicy płucnej.

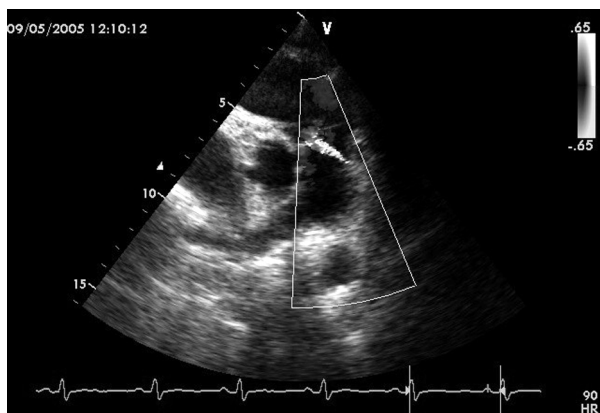
W badaniu echokardiograficznym we wszystkich przypadkach potwierdzono obecność nieprawidłowego skurczowo-rozkurczowego napływu do tętnicy płucnej. Miejsce napływu było nietypowe dla przetrwałego przewodu tętniczego — u 2 pacjentów była to ściana boczna (ryc. 1), a u 1 chorego ściana przyśrodkowa pnia tętnicy płucnej (ryc. 2). Takie miejsce napływu sugerowało anomalię wieńcową (nieprawidłowe odejście pnia lub gałęzi tętnicy wieńcowej od tętnicy płucnej lub przetokę wieńcową).

Ponadto u 1 pacjenta zarejestrowano nieistotną hemodynamicznie niedomykalność zastawki mitralnej.

U wszystkich chorych wykonano koronarografię, uwidaczniając niewielkie przetoki odchodzące od lewej tętnicy wieńcowej do tętnicy płucnej (ryc. 3). Dane pacjentów przedstawiono w tabeli 1.

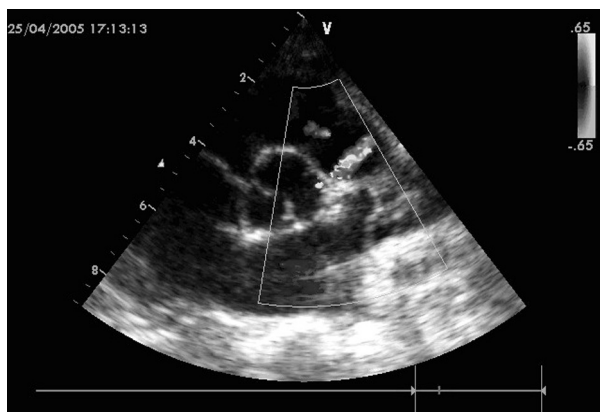
Ze względu na dobry stan ogólny pacjentów, brak objawów niewydolności serca i bólów o charakterze wieńcowym oraz niewielkie rozmiary przetoki chorych nie zakwalifikowano do zamknięcia przetok.

Adres do korespondencji: Dr med. Maciej Chojnicki
 Klinika Kardiologii Dziecięcej i Wad Wrodzonych Serca AMG
 ul. Dębinki 7, 80–221 Gdańsk
 tel. (0 58) 349 28 82, faks (0 58) 349 28 95
 e-mail: chojnick@amg.gda.pl
 Nadesłano: 5.08.2005 r. Przyjęto do druku: 28.09.2005 r.



Rycina 1. Badanie echokardiograficzne. Oś krótka naczyniowa. W badaniu dopplerowskim wykonanym metodą kolorowego znakowania przepływu widoczny nieprawidłowy napływ rozkurczowy do tętnicy płucnej od strony jej bocznej ściany

Figure 1. Echocardiographic examination. Vascular short axis. Incorrect diastolic inflow to pulmonary artery from it's lateral wall visible in color Doppler examination

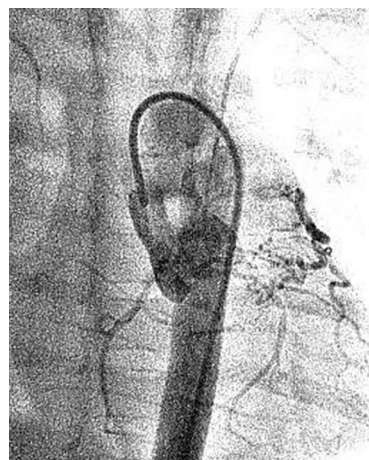


Rycina 2. Badanie echokardiograficzne. Oś krótka naczyniowa. W badaniu dopplerowskim wykonanym metodą kolorowego znakowania przepływu widoczny nieprawidłowy napływ rozkurczowy do tętnicy płucnej od strony jej ściany przyśrodkowej

Figure 2. Echocardiographic examination. Vascular short axis. Incorrect systolic inflow to pulmonary artery from it's medial wall visible in color Doppler examination

Dyskusja

Przetoki wieńcowe są rzadkimi wrodzonymi wadami serca. Częstość ich występowania wynosi ok. 0,002% [1–4]. Mogą one odchodzić zarówno od prawej, jak i od lewej tętnicy wieńcowej oraz od ich gałęzi. Najczęściej występują przetoki prawej tętnicy wieńcowej (50–55%), lewej tętnicy wieńcowej (40%),



Rycina 3. Pacjent nr 1. Aortografia. Widoczna niewielka przetoka łącząca lewą tętnicę wieńcową z tętnicą płucną

Figure 3. Patient No 1. Aortography. A small fistula connecting left coronary artery with pulmonary artery

a rzadziej obu tętnic (5%). Przetoki spływają zwykle do komory prawej (40%), prawego przedsionka (25%), tętnicy płucnej (15–20%), rzadziej do zatoki wieńcowej (7%) lub żyły głównej górnej (1%) [2, 3, 9].

U większości pacjentów z tą anomalią oprócz zmian osłuchowych nie występują żadne objawy. Dolegliwości mogą wynikać z dużego przepływu przez przetokę lub niedokrwienia mięśnia sercowego. W wywiadzie najczęściej stwierdza się niewydolność serca i bóle w klatce piersiowej. Obserwowane objawy zależą od wielkości przetoki oraz współistniejących zaburzeń w przepływie wieńcowym (zespół podkradania). W przypadku dużych przetok w badaniu przedmiotowym stwierdza się ciągły szmer nad sercem, w badaniu RTG klatki piersiowej powiększoną sylwetkę serca, a w badaniu elektrokardiograficznym cechy niedokrwienia mięśnia sercowego oraz powiększenia jego jam [2, 6, 11, 13–15].

Badanie echokardiograficzne wykorzystuje się w ocenie funkcji miokardium i wielkości jego jam. Na jego podstawie często można też ustalić miejsce ujścia przetoki. Podstawową metodą obrazowania przetok wieńcowych jest koronarografia. Pozwala ona na precyzyjne ustalenie anatomii wady, miejsca odejścia naczyń zasilających przetokę oraz miejsca ujścia przetoki. Możliwa jest też ich ocena za pomocą technik nieinwazyjnych: tomografii komputerowej wysokiej rozdzielczości i rezonansu magnetycznego [1–2, 6, 8, 13].

Obecnie dostępne jest zarówno operacyjne, jak i interwencyjne leczenie przetok wieńcowych. Wybór metody zależy od anatomii wady i doświadczenia ośrodka leczącego [3, 5, 8–10, 13, 15].

Tabela 1. Dane kliniczne oraz angiograficzne pacjentów**Table 1.** Clinical and angiographic patients' data

Nr	Wiek (lata)	Płeć	Szmer	Miejsce odejścia	Miejsce ujęcia	Liczba naczyń zasilających przetokę	Tętniakowate poszerzenia naczyń przetoki	Próba wysiłkowa
1	2	Męska	Skurczowy	Pień lewej tętnicy wieńcowej	Pień tętnicy płucnej	1	–	Nie wykonano
2	6	Męska	Skurczowy	Pień lewej tętnicy wieńcowej, gałąź przednia zstępująca lewej tętnicy wieńcowej	Pień tętnicy płucnej	2	–	Nie wykonano
3	14	Męska	Skurczowy	Pień lewej tętnicy wieńcowej, gałąź przednia zstępująca lewej tętnicy wieńcowej	Pień tętnicy płucnej	2	+	Ujemna

Dotychczas nie ustalono standardów postępowania w kwalifikacji do leczenia przetok wieńcowych u dzieci. Powszechnie uznaje się konieczność zamykania dużych przetok lub tych, które powodują objawy kliniczne. Wiele kontrowersji budzi leczenie małych, bezobjawowych przetok wieńcowych. Jedni autorzy sugerują konieczność zamykania wszystkich przetok ze względu na znaczny odsetek późnych powikłań oraz niewielkie ryzyko zabiegu [1, 3, 6–8]. Z kolei przeciwnie uważają inni badacze,

wskazując na istnienie możliwości samoistnego zamknięcia się małych przetok wieńcowych i niewielkie ryzyko późnych powikłań, dlatego nie zalecają zamykania małych, bezobjawowych przetok [9–12]. Dostępne w literaturze długotrwałe obserwacje pacjentów z niewielkimi przetokami sugerują, że zasadne jest postępowanie konserwatywne. Należy więc przyjąć, że konieczna jest dalsza obserwacja chorych, co może być przydatne w wypracowania algorytmu postępowania w przypadku takiej wady.

Streszczenie

Przetoki wieńcowe są rzadkimi wrodzonymi wadami serca będącymi bezpośrednimi połączeniami między tętnicą wieńcową a jamami serca, tętnicą płucną, zatoką wieńcową, żyłą główną górną lub żyłami płucnymi. Częstość ich występowania wynosi ok. 0,002%. Przetoka wieńcowa zwykle jest wadą izolowaną, czasami występuje z innymi anomaliami układu krążenia, takimi jak zarośnięcie zastawki tętnicy płucnej z ciągłą przegrodą międzykomorową oraz zespół hipoplazji lewego serca. Nie ustalono jednoznacznie wskazań do leczenia izolowanych przetok wieńcowych. Jedni autorzy zalecają zamykanie tylko przetok wywołujących objawy kliniczne, według innych nawet bezobjawowe przetoki powinny być zamknięte ze względu na postępujący charakter wady i powikłania mogące się pojawić po drugiej dekadzie życia. (Folia Cardiol. 2006; 13: 89–92)

przetoka wieńcowa, leczenia operacyjne, leczenie interwencyjne

Piśmiennictwo

1. Kodolitsch Y., Franzen O., Lund G., Koschyk D., Ito W., Meinertz T. Coronary artery anomalies. Part II: recent insights from clinical investigations. *Z. Kardiol.* 2005; 94: 1–13.
2. Maleszka A., Kleikamp G., Minami K., Peterschröder A., Körfer R. Giant coronary arteriovenous fistula a case report and review of the literature. *Z. Kardiol.* 2005; 94: 38–43.
3. Garson A., Bricker Jr J., Fisher D., Neish S. The science and practice of pediatric cardiology. Congenital coronary artery anomalies 1647–1668. Wyd. 2. Williams & Wilkins 1998.
4. Schumacher G., Roithmaier A., Lorenz H. i wsp. Congenital coronary artery fistula in infancy and childhood: diagnostic and therapeutic aspects. *Thorac. Cardiovasc. Surg.* 1998; 46: 382–383.
5. Mavroudis C., Backer C., Rocchini A., Muster A., Gevitz M. Coronary artery fistula in infants and children: a surgical review and discussion of coil embolization. *Ann. Thorac. Surg.* 1997; 63: 1235–1242.
6. Reul R., Cooley D., Hallman G., Reul G. Surgical Treatment of Coronary Artery Anomalies Report of a 37 1/2-Year Experience at the Texas Heart Institute. *Tex. Heart Inst. J.* 2002; 29: 299–307.
7. Griffiths S.P., Ellis K., Hordof A.J., Martin E., Levine O.R., Gersony W.M. Spontaneous complete closure of a congenital coronary artery fistula. *J. Am. Coll. Cardiol.* 1983; 2: 1169–1173.
8. Armsby L., Keane J., Sherwood M., Forbess J., Perry S., Lock J. Management of coronary artery fistulae. Patient selection and results of transcatheter closure. *J. Am. Coll. Cardiol.* 2002; 39: 1026–1032.
9. Tirilomis T., Aleksic I., Busch T., Zenker D., Ruschewski W., Dalichau H. Congenital coronary artery fistulas in adults: surgical treatment and outcome. *Int. J. Cardiol.* 2005; 98: 57–59.
10. Karagoz T., Celiker A., Çil B., Çekirge S. Transcatheter embolization of a coronary fistula originating from the left anterior descending artery by using N-butyl 2-cyanoacrylate. *Cardiovasc. Intervent. Radiol.* 2004; 27: 663–665.
11. Radomski M., Kubica J., Sukiennik A. i wsp. Przetoka łącząca gałąź międzykomorową przednią lewej tętnicy wieńcowej ze światłem prawej komory: rzadkie powikłanie zawału serca. *Folia Cardiol.* 1999; 6: 399–403.
12. Griffiths S.P., Ellis K., Hordof A.J., Martin E., Levine O.R., Gersony W.M. Spontaneous complete closure of a congenital coronary artery fistula. *J. Am. Coll. Cardiol.* 1983; 2: 1169–1173.
13. Ades A., Sell J., Aly H., Sable C. Early presentation of a congenital coronary artery fistula in a neonate. *Pediatr. Cardiol.* 2000; 21: 275–278.
14. Sunder K., Balakrishnan K., Tharakan J. i wsp. Coronary artery fistula in children and adults: a review of 25 cases with long term observation. *Internat. J. Cardiol.* 1997; 58: 47–53.
15. Cheung D., Au W., Cheung H., Chiu C., Lee W. Coronary artery fistulas: long-term results of surgical correction. *Ann. Thorac. Surg.* 2001; 71: 190–195.