

Chirurgické řešení píštěle mezi aneuryzmatem věnčité tepny a pravou síní

Michal Semrád¹, Petr Bodlák¹, Martin Strítěský¹, Vladimír Vondráček¹, Jan Vojáček², Petr Hájek², Jaroslav Lindner¹, Jan Kunstýř¹, Ivan Vaněk¹

¹II. chirurgická klinika kardiovaskulární chirurgie 1. LF UK a VFN, Praha

²Kardiocentrum dospělých, oddělení invazivní kardiologie interní kliniky 2. LF UK a FN Motol, Praha

Dvaapadesátiletá nemocná s píštělí věnčité tepny mezi aneuryzmaticky změněným ramus circumflexus (RCx) a pravou síní byla indikována k chirurgickému řešení pro výrazný levoprávní zkrat ($Qp/Qs = 2,72$) a městnavou srdeční slabost. Principem chirurgického řešení bylo uzavření tepenného přítoku do RCx pomocí perikardiální záplaty z kmene levé věnčité tepny s ponecháním vtoku do ramus interventricularis anterior (RIA) a ramus intermedius (RIM) a dále uzavření komunikace mezi RCx a sinus coronarius. Kvalitní dlouhodobou průchodnost RIA mělo zajistit provedení preventivního bypassu na tuto tepnu pomocí levé a. mammae. Kontrolní angiografické vyšetření 2 měsíce po výkonu prokázalo uzavěr píštěle a aneuryzmatu RCx, dobře průchodný RIA i RIM z nativního odstupů a kontrastem jen proximálně naplněný bypass LIMA – RIA. Pooperační průběh nebyl bez komplikací, ale výsledkem je vymizení klinických obtíží u nemocné plně zapojené do aktivního života.

Klíčová slova: píštěl věnčité tepny, aneuryzma věnčité tepny.

SURGICAL TREATMENT OF CORONARY ARTERY ANEURYSM-TO-RIGHT ATRIUM FISTULA

52-year-old female with a marked left-to-right shunt ($Qp/Qs = 2,72$) due to circumflex coronary artery aneurysm-to-right atrium fistula and congestive heart failure was indicated for surgery. Operative management involved proximal pericardial patch occlusion of circumflex artery aneurysm transluminally through the dilated left main coronary artery stem, leaving left anterior descending (LAD) and intermedius (IM) branch ostium intact and followed by distal circumflex coronary artery-to-coronary sinus fistula ligation. A left internal mammary artery (LIMA) – LAD coronary artery bypass was performed to secure a perfect flow through LAD. Follow-up angiography 2 months after operation showed total occlusion of the fistula and circumflex artery aneurysm, patent LAD and IM branches with intact native ostia and only proximal part of LIMA – LAD bypass contrast filling. Although the postoperative course was not uneventful, finally the patient is symptom-free and leading an active life.

Key words: coronary artery fistula, coronary artery aneurysm.

Interv Akut Kardiolog 2002;1:50–54

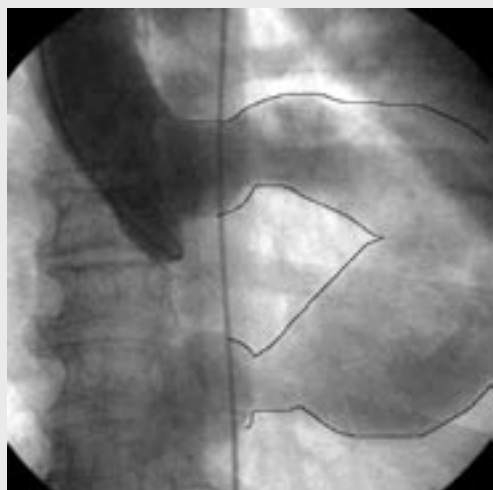
Úvod

Vrozené píštěle věnčitých tepen představují, vedle anomálního odstupů věnčité tepny z aorty nebo plicnice, druhou nejčastější vrozenou anomálii koronárních arterií. Píštěl znamená přímou komunikaci mezi jednou nebo dvěma věnčitými tepnami a velkými cévami nebo některým ze srdečních oddílů bez vmezeřeného kapilárního řečiště. Incidence těchto odchylek je udávána v literatuře mezi 0,1–1,0 % u pacientů podstupujících angiografii věnčitých tepen⁽¹⁾ a nacházíme je u 1/50 000 narozených dětí s kongenitální srdeční vadou⁽²⁾. Vyskytují se jako primární nebo jsou tzv. sekundární, sdružené s jinými srdečními vadami (nedomykavost chlopní, atrézie a zúžení chlopně plicnice, defekt mezisíňové a mezikomorové přepážky). Vývojově jsou jednostranné a-v píštěle věnčitých tepen způsobené přetrváváním embryonálních sinusoid, které spojují tvořící se epikardiální věnčité tepny se srdečními dutinami. Tyto normálně atrofují a u dospělého jedince jsou přítomny jen jako Thebesiánské žíly. Píštěle vycházející z obou věnčitých tepen jsou velmi vzácné a většinou ústí do plicní tepny. Vznikají mnohočetnými srůsty rostoucích věnčitých tepen s plicnicovou částí embryonálního truncus arterio-

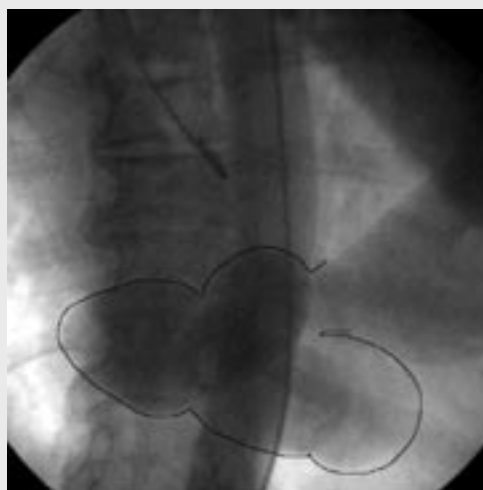
sus. Udává se, že asi 55 % píštělí vychází z pravé věnčité tepny, okolo 40 % z levé věnčité tepny a 5 % z obou věnčitých tepen. Vyústění píštělí je popisováno především do pravostranných srdečních oddílů nebo cév, které s pravostrannými srdečními oddíly komunikují (přes 90 %). Okolo 40–45 % píštělí ústí do pravé komory, 25 % do pravé síně, 15–20 % do plicní tepny, 1–7 % do koronárního sinu a pouze 1 % do horní duté žíly. Jen asi 8 % píštělí ústí do levostranných srdečních oddílů, z toho 5 % do levé síně a pouze okolo 3 % do levé komory srdeční, jsou popsány ojedinělé případy vyústění píštěle do plicních žil^(3, 4).

Prírodná část příslušné věnčité tepny zásobující píštěl je vždy dilatována a elongována ve svém průběhu v závislosti na velikosti zkratu, někdy se může i aneuryzmaticky rozšířit. K ruptuře takového aneuryzmatu dochází však jen zřídka⁽⁵⁾. Vyústění píštěle do srdeční dutiny nebo velké cévy bývá častěji jedním kanálem, někdy je přítomno několik ústí či dokonce cévní pletě. Patofyziologie těchto lézí je závislá na lokalizaci patologické komunikace a na velikosti zkratu. Pokud ústí do nízkotlakých pravostranných srdečních oddílů nebo levé síně, pak dochází ke kontinuálnímu toku krve píštělí, pokud

Obrázek 1. Aneuryzmaticky rozšířený *ramus circumflexus* (zvýrazněn tmavou linkou) tvořící přívodní větev píštěle.



Obrázek 2. Aneuryzmaticky dilatovaná v. *cordis magna* (zvýrazněna tmavou linkou) tvořící odvodní část píštěle.



Obrázek 3. *Ramus interventricularis anterior* a *ramus intermedius* odstupují z dilatovaného kmene levé věnčité tepny (anatomické poměry znázorněny světlou linkou).



Obrázek 4. Předoperační TEE vyšetření prokázalo výrazný perikardiální výpotek (PE) kolem celého srdce.



ústí do levé komory srdeční, prochází krev jen v diastole a taková píštěl může mít stejné hemodynamické důsledky jako nedomykavost aortální chlopně. Zkrat vede k objemovému přetěžování a dilataci postiženého srdečního oddílu. Největší rozšíření příslušného srdečního oddílu je popisováno při vyústění píštěle do koronárního sinu⁽⁶⁾. U hemodynamicky významných píštělí nacházíme známky hyperkinetické cirkulace. Periferie postižené věnčité tepny je ochuzována o krev procházející píštělí a může dojít k projevům ischemie myokardu. Při vysoké rychlosti proudění krve, která prochází zkratem, se Venturiho efektem nasává krev přes kolaterální oběh z druhé, nepostižené věnčité tepny, ischemie myokardu se prohlubuje a hovoříme o tzv. steal fenoménu⁽⁷⁾.

Většina pacientů s izolovanou píštělí věnčité tepny je mnoho let asymptomatických. Udává se, že až 90 % nemocných s hemodynamicky významným levoprávním zkratem nemá do 20 let věku žádné obtíže⁽⁸⁾. Klinické příznaky se často objevují až ve 4.–6. decenniu. Nejčastěji se vyskytují

symptomy způsobené přetížením levé nebo pravé komory srdeční v závislosti na místě vyústění píštěle. Závažnou komplikací je městňavá srdeční slabost, která je popisována u 19–23 % pacientů⁽⁹⁾. Jak často dochází k progresi velikosti zkratu není známo. Studie, které opakovaly katetrizační vyšetření za 10 až 15 let prokázaly, že jeho velikost se nemění⁽¹⁰⁾. Spontánní uzavěr píštěle je popisován zřídka, i když je zkrat malý ($Q_p: Q_s < 1,3$). Svůj význam při klinické manifestaci má jistě délka trvání zkratové vady a tím i doba objemového přetěžování určitého srdečního oddílu. Další komplikací píštěle věnčité tepny je ischemie myokardu, která se klinicky manifestuje častěji anginou pectoris u 7–18 % pacientů a zřídka infarktem myokardu, který je popisován u 3 % nemocných⁽⁹⁾. Mezi vzácnější komplikace patří bakteriální endokarditida u 4 % pacientů⁽¹¹⁾ a aneurymatická dilatace věnčité tepny s trombózou, embolizací nebo rupturou^(12,13).

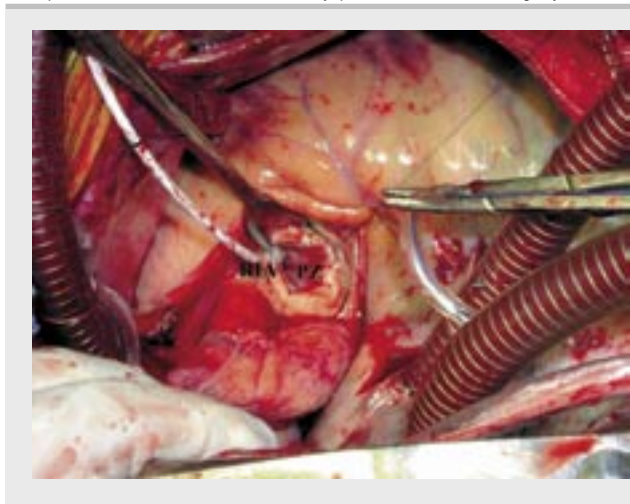
Diagnóza píštěle věnčité tepny může být obtížná, vzhledem k tomu, že více než polovina nemocných je asymptomatických. Tyto vrozené anomálie bývají často náhodným

Aneurysma RCx

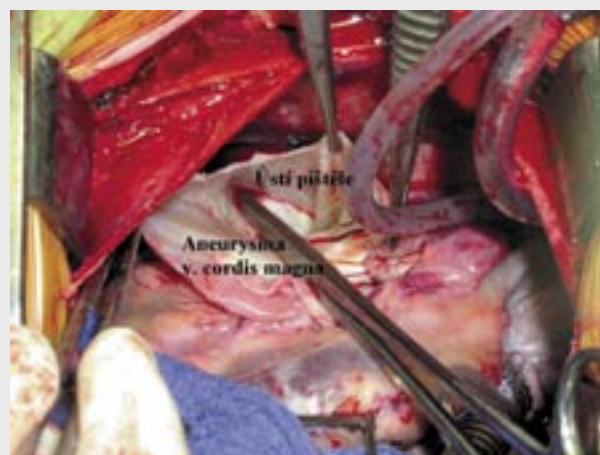
Aneurysma
v. cordis magna

Interv Akut Kardiolog 2002;1:50-54

Obrázek 9. Ústí *ramus circumflexus* bylo uzavřeno záplatou z perikardu (PZ), do odstupu *ramus interventricularis anterior* byl pro kontrolu zaveden Fogartyho katetr.



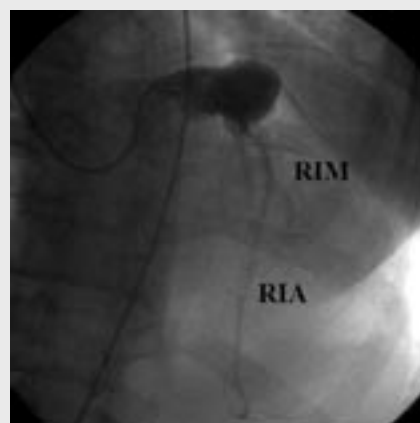
Obrázek 10. Vyústění píštěle věnčité tepny jedním kanálem do aneuryzmaticky změněné v. cordis magna



Obrázek 11. Pooperační TEE vyšetření prokázalo spolehlivý uzávěr proximálního konce píštěle aneuryzmaticky změněného *ramus circumflexus*



Obrázek 12. Kontrolní angiografické vyšetření 2 měsíce po výkonu. *Ramus interventricularis anterior* i *ramus interventricularis* se dobře plní z dilatovaného kmene levé věnčité tepny. Není patrna náplň *ramus circumflexus*.



průběhu (obrázek 3). Předoperační echokardiografické vyšetření prokázalo normální ejekční frakci levé komory srdeční (EF=56 %), velký perikardiální výpotek kolem celého srdce (obrázek 4), dilatovaný kmen levé věnčité tepny (obrázek 5) a aneurysma RCx s maximálním průměrem až 100 mm, které ústilo do pravé síně.

Operačním přístupem byla střední sternotomie a po otevření dutiny osrdečníku bylo odsáto **2500 ml** jantarové tekutiny. Srdce bylo nalezeno se zvětšenými pravostrannými srdečními oddíly, byla uvolněna levá a. mammaria (LIMA) a aplikován heparin. Mimetální oběh byl zaveden se žilní drenáží dvěma selektivními kanyly v obou vv. cavae, s tepennou linkou v ascendentní aortě a další odsávací linkou ve v. pulmonalis superior dx. Po spuštění MO, na vyprázdněném bijícím srdci, byla prohlédnuta a-v píštěl, která byla tvořena obrovským *ramus circumflexus* o zevním průměru až 10 cm (obrázek 6), který ústil do dilatované v. cordis magna cca 7 cm před jejím vstupem do sinus coronarius. Za vyústěním píštěle byla v. cordis magna aneuryzmaticky dilatována na cca 6×6 cm (obrázek 7). Ochrana myokardu byla zajištěna antegrádní intermitentní studenou krevní kardioplegií, retroplegie,

vzhledem k a-v komunikaci v oblasti *sinus coronarius*, nemohla být použita. Poté byla příčně otevřena křehká ascendentní aorta a prohlédnuty odstupy věnčitých tepen. Odstup arteria coronaria dextra (ACD) byl bez pozoruhodností, kmen levé věnčité tepny (LVT) byl dilatován na průměr 30 mm, cca po 2 cm průběhu bylo patrné ústí RIA a po dalším 1 cm odstup *ramus intermedius*. Dilatovaný kmen LVT plynule pokračoval ve výduť RCx (obrázek 8). Odstup RCx jsme uzavřeli perikardiální záplatou o šíři 3×3 cm, šitou z lumina kmene LVT inkluzní technikou pod odstupem RIA a RIM. Tím byla provedena plastika kmene LVT s výtokem do RIA a RIM a současně uzavřen tepenný přítok do a-v píštěle (obrázek 9). Kvalitní dlouhodobou průchodnost RIA jsme chtěli pojistit provedením preventivního bypassu na tuto tepnu pomocí levé a. mammaria. Následovalo otevření RIA ve střední třetině a distální anastomóza koncem LIMA ke straně tepny. Po obnovení průtoku štepem a. mammaria se celá RIA dobře plnila, krev vytékala i z proximálního ústí. Poté byla otevřena žilní výduť na v. cordis magna a nalezeno ústí píštěle mezi RCx a žilním systémem (obrázek 10). Distální ústí a-v píštěle bylo uzavřeno pokračujícím Prolene stehem a poté žilní výduť

resekována. Nakonec byla provedena sutura ascendenti aorty, obnovena srdeční akce a pomocí transezofageálního echokardiografického vyšetření provedena kontrola uzávěru výdutě RCx a vyloučena přítomnost zkratu (obrázek 11). Poté byl postupně odpojen mimotělní oběh, neutralizován heparin a uzavřena operační rána. Sedm hodin po výkonu byla nemocná revidována pro krvácení, jeho zdrojem byly vpichy po sternálních drátech. Extubována byla 2. pooperační den, 4. pooperační den byla provedena elektrická kardioverze pro recidivu fibrilace síní, 6. den došlo k plicní embolii do dolního laloku levé plice s nutností reintubace a umělé plicní ventilace. Osmý pooperační den byla, pro snadnější udržení průchodnosti horních cest dýchacích při neschopnosti spolupráce nemocné, perkutánně zavedena tracheostomická kanyla. Pacientka byla 16. pooperační den, již zcela nezávislá na umělé plicní ventilaci a s bezbalonkovou tracheostomickou kanylou, přeložena k doléčení a intenzivní rehabilitaci na Koronární jednotku interní kliniky FN Motol, kde pobyla 4 dny. Poté byla přeložena na standardní oddělení téže kliniky. Zde byla 20. pooperační den odstraněna tracheostomická kanyla, opakovaně prováděny punkce perikardiálního výpotku a léčba mastitis levého prsu. Nemocná byla se sinusovým rytmem, afebrilní, kardiopulmonálně kompenzovaná, plně mobilní a se zhojenou operační ranou 52. pooperační den propuštěna do domácího léčení. Kontrolní angiografické vyšetření 2 měsíce po výkonu prokázalo uzávěr píštěle a aneuryzmatu RCx, dobře průchodné RIA i RIM včetně nativních odstupů a kontrastem jen proximálně naplněný bypass LIMA – RIA (obrázek 12).

Diskuze

Doporučená léčba píštělí věnčitých tepen je chirurgická, ale stále častěji jsou v literatuře popisovány případy katetrizační embolizace menších zkratů^(16, 17). První operaci

uskutečnil v r. 1947 Crafoord⁽¹⁸⁾, kdy u nemocného, který byl operován s podezřením na otevřenou Botallovu dučeň, byla peroperačně nalezena a podvázána píštěl, ústící do arteria pulmonalis. Operační postup závisí na anatomické lokalizaci a na přidružených srdečních onemocněních. Za příznivých anatomických poměrů je nejbezpečnějším řešením úplné přerušení píštěle s podvazem a přešitím obou konců. Na otevřeném srdci je možno píštěl obliterovat suturou nebo záplattou^(19, 20). U aneuryzmaticky dilatované píštěle se doporučuje exkluze nebo excize aneuryzmatu, v některých případech je nutné provést ligaturu věnčité tepny a následný aortokoronární bypass⁽²¹⁾. U velkých a hemodynamicky závažných píštělí je chirurgická léčba jednoznačně indikována. Operační riziko se zvyšuje s věkem. Nejčastější pooperační komplikací je akutní infarkt myokardu ve 3 %, pooperační recidiva píštěle ve 4 % a plicní embolie ve 2 %. Operační mortalita je při malých píštělech do 0,3 %, při aneuryzmaticky dilatovaných a hemodynamicky závažných zkratech je kolem 6 %⁽²²⁾.

V našem případě jsme se rozhodli pro uzávěr obou konců píštěle. Tepenný přítok do RCx jsme uzavřeli plastikou z kmene levé věnčité tepny s ponecháním vtoku do RIA a RIM a komunikaci do *sinus coronarius* jsme uzavřeli stehem. Tímto způsobem došlo k odstranění píštěle a eliminaci rizika její recidivy. Rozšířené odstupy věnčitých tepen nejsou dle literárních údajů⁽²³⁾ rizikovým faktorem pro vznik nástěnné trombózy nebo ruptury (např. u nemocných se supraventrikulární stenózou aortální chlopně a poruchou tvorby elastinu), proto jsme dilatovaný kmen levé věnčité tepny ponechali bez rekonstrukce. Preventivní bypass pomocí levé a. *mammaria* na RIA může být průchodný, ale nezobrazil se pro kompetici mezi nativním průtokem věnčitou tepnou a štěpem a. *mammaria*. Pooperační průběh nebyl bez komplikací, ale výsledkem je vymizení klinických obtíží u nemocné plně zapojené do běžného života.

Literatura

- Gillebert C, Van Hoof R, Van de Werf F, Piessens J, De Geest H. Coronary artery fistulas in an adult population. *Eur Heart J* 1986;7(5):437–443.
- Urrutia-S CO, Falaschi G, Ott DA, Cooley DA. Surgical management of 56 patients with congenital coronary artery fistulas. *Ann Thorac Surg* 1983;35(3):300–307.
- Baltaxe HA, Wixson D. The incidence of congenital anomalies of the coronary arteries in the adult population. *Radiology* 1977;122(1):47–52.
- Levin DC, Fellows KE, Abrams HL. Hemodynamically significant primary anomalies of the coronary arteries:angiographic aspects. *Circulation* 1978;58:25–34.
- Bauer HH, Allmendinger PD, Flaherty J, Owlia D, Rossi MA, Chen C. Congenital Coronary Arteriovenous Fistula:Spontaneous Rupture and Cardiac Tamponade. *Ann Thorac Surg* 1996;62:1521–1523.
- Wang S, Wu O, Hu S, Xu J, Sun L, Song Y, Lu F. Surgical treatment of 52 patients with congenital coronary artery fistulas. *Chin Med J (Engl)* 2001;114(7):752–755.
- Cheng TO. Left coronary artery-to-left ventricular fistula:demonstration of coronary steal phenomenon. *Am Heart J* 1982;104:870–872.
- Liberthson RR, Sagar K, Berkoben JP, Weintraub RM, Levine FH. Congenital coronary arteriovenous fistula. Review of 13 patients, review of the literature and delineation of management. *Circulation* 1979;59(5):849–854.
- Rittenhouse EA, Doty DB, Ehrenhaft JL. Congenital coronary artery - cardiac chamber fistula. Review of operative management. *Ann Thorac Surg* 1975;20(4):468–485.
- Jaffe RB, Glancy DL, Epstein SE, Brown BG, Morrow AG. Coronary arterial-right heart fistulae. Long-term observations in seven patients. *Circulation* 1973;47(1):133–143.
- Alkhulaifi AM, Horner SM, Pugsley WB, Swanton RH. Coronary artery fistulas presenting with bacterial endocarditis. *Ann Thorac Surg* 1995;60(1):202–204.
- Chamberlain MH, Henry R, Brann S, Angelini GD. Surgical management of a gigantic circumflex coronary artery aneurysm with fistulous connection to the coronary sinus. *Eur J Cardiothorac Surg* 2001;20(6):1255–1257.

- Roughneen PT, Bhattacharjee M, Morris PT, Nasser M, Reul GJ. Spontaneous thrombosis in a coronary artery fistula with aneurysmal dilatation of the sinus of Valsalva. *Ann Thorac Surg* 1994;57(1):232–234.
- Wu QY, Li DY, Hu SS, Pan SW, Qi ST. Surgical Treatment of giant coronary artery aneurysm. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2001;9(3):215–217.
- Kozelj M, Kranjec I, Kosin M, Marcun R, Podnar T. Fistulous communication between the right coronary artery and left atrium. *J Am Soc Echocardiogr* 2002;15(4):385–388.
- Alekyan BG, Podzolkov VP, Cárdenas CE. Transcatheter Coil Embolization of Coronary Artery Fistula. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2002;10:47–52.
- Buheitel G, Ludwig J, Hofbeck M. Transcatheter occlusion of a large coronary arterial fistula with new detachable platinum microcoils. *Cardiol Young* 2001;11(5):571–573.
- Biorck N, Crafoord C. Arteriovenous aneurysm of the pulmonary artery simulating patent ductus arteriosus Botalli. *Thorax* 1947;2:65.
- Gu CJ, Zhang ZW, Yan DM, et al. Surgical treatment of coronary artery fistula, *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2000;8(1):24–26.
- Lowe JE, Oldham HN Jr, Sabiston DC Jr. Surgical management of congenital coronary artery fistulas. *Ann Surg* 1981;194(4):373–380.
- Cimen S, Kaplan M, Gercekoglu H, et al. Coronary arteriovenous fistulas. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2000;8(3):235–237.
- Cheung DL, Au WK, Cheung HH, Chiu CS, Lee WT. Coronary artery fistulas: long-term results of surgical correction. *Ann Thorac Surg* 2001;71(1):190–195.
- Stamm C, Friehs I, Ho SY, Moran AM, Jonas RA, del Nido PJ. Congenital supraventricular aortic stenosis: a simple lesion? *Eur J Cardiothorac Surg* 2001;19(2):195–202.

MUDr. Michal Semrád, CSc., II. chirurgická klinika kardiovaskulární chirurgie, VFN a I. LF UK,
U nemocnice 2, 128 00 Praha, e-mail: semrad@post.cz