

Ενδιαφέρουσα Περίπτωση

Διάγνωση Ευμεγέθους Στεφανιαίας Αρτηριοφλεβώδους Επικοινωνίας ως Τυχαίο Εύρημα. Ευρήματα από τη Στεφανιογραφία και τη Μαγνητική Τομογραφία Καρδιάς

ΠΑΥΛΟΣ Ν. ΣΤΟΥΓΙΑΝΝΟΣ¹, ΠΕΤΡΟΣ Γ. ΔΑΝΙΑΣ^{2,3}, ΕΜΜΑΝΟΥΗΛ Ν. ΚΑΡΑΤΖΗΣ²,
ΑΠΟΣΤΟΛΟΣ Θ. ΚΑΚΚΑΒΑΣ¹, ΑΘΑΝΑΣΙΟΣ Γ. ΤΡΙΚΑΣ¹

¹Καρδιολογικό Τμήμα, ΓΝΑ «Η ΕΛΠΙΣ», Αθήνα, Ελλάδα, ²Κέντρο Μαγνητικής Τομογραφίας Καρδιάς και 2η Καρδιολογική Κλινική, Νοσοκομείο Υγεία, Αθήνα, Ελλάδα, ³Ιατρική Σχολή Παν/μιου Tufts, Βοστώνη, ΗΠΑ

Λέξεις ευρετηρίου:
Ανωμαλίες
στεφανιαίων
αρτηριών,
επικοινωνία
στεφανιαίας
αρτηρίας, μαγνητική
τομογραφία
καρδιάς, απεικόνιση
στεφανιαίων

Παρουσιάζουμε την περίπτωση ενός άνδρα 75 ετών με αρτηριοφλεβώδη επικοινωνία των στεφανιαίων αρτηριών που ανευρέθει τυχαία κατά τη διάρκεια στεφανιαίας αγγειογραφίας. Περιγράφουμε τη διαγνωστική μας προσέγγιση και κάνουμε μια ανασκόπηση της βιβλιογραφίας όσον αφορά την αιτιολογία, την επιδημιολογία, τα διαγνωστικά μέσα και τη θεραπευτική αντιμετώπιση των αρτηριοφλεβωδών επικοινωνιών των στεφανιαίων αρτηριών.

Οι αρτηριοφλεβώδεις επικοινωνίες των στεφανιαίων αρτηριών (coronary artery fistulas- CAF) είναι σπάνιες ανωμαλίες των στεφανιαίων, που μερικές φορές είναι εντελώς ασυμπτωματικές και ανευρίσκονται τυχαία κατά τη διενέργεια στεφανιογραφίας στην ενήλικη ζωή. Παρουσιάζουμε την περίπτωση ενός άνδρα ηλικίας 75 ετών με τέτοιου τύπου επικοινωνία και τη διαγνωστική προσέγγιση που ακολουθήσαμε. Παράλληλα, κάνουμε μια βραχεία βιβλιογραφική ανασκόπηση στην αιτιολογία, την επιδημιολογία, τα διαγνωστικά μέσα και τη θεραπευτική αντιμετώπιση των αρτηριοφλεβωδών επικοινωνιών των στεφανιαίων αρτηριών.

Παρουσίαση περιστατικού

Ένας άνδρας 75 ετών προσήλθε στην κλινική μας για διενέργεια στεφανιογραφικού ελέγχου, λόγω θετικής ΗΚΓικής δοκιμασίας κόπωσης, στα πλαίσια διερεύνησης άτυπου θωρακικού άλγους. Στην υπερηχοκαρδιογραφική μελέτη η αριστερά κοιλία ήταν

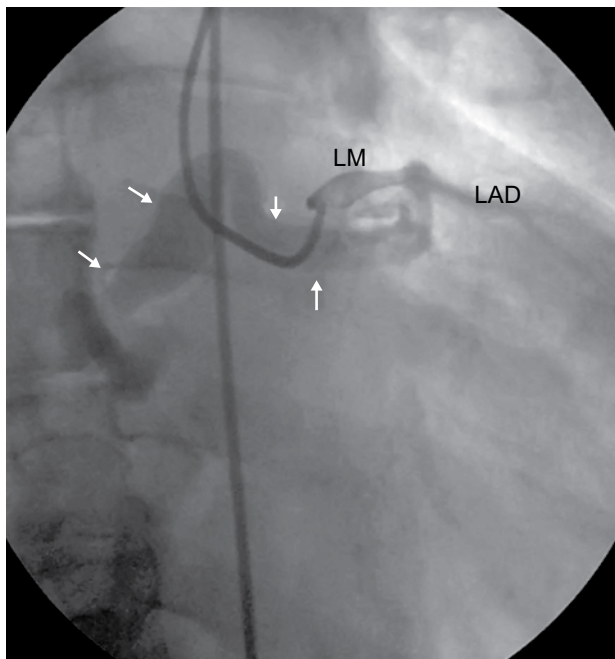
φυσιολογικών διαστάσεων και λειτουργικότητας, ενώ η δεξιά κοιλία είχε οριακά αυξημένες διαστάσεις με φυσιολογική συστολική λειτουργία.

Κατά τη διάρκεια της στεφανιογραφίας και κατά τη σκιαγράφιση της αριστερής στεφανιαίας αρτηρίας απεικονίστηκε ένα διατεταμένο, ελικοειδές αγγείο, που εκφυόταν από το στέλεχος της αριστεράς στεφανιαίας αρτηρίας και ακολουθώντας οπισθιο-πλαγία πορεία κατέληγε στις δεξιές καρδιακές κοιλότητες (Εικόνα 1). Η δεξιά στεφανιαία αρτηρία είχε φυσιολογική ανατομία. Οι στεφανιαίες αρτηρίες παρουσίαζαν ήπιες αθηρωματικές αλλοιώσεις, χωρίς κριτικές στενώσεις. Κατά το δεξιό καρδιακό καθετηριασμό, βρέθηκε οριακή αύξηση (step up) του κορεσμού O₂ στο δεξιό κόλπο, συγκριτικά με τον κορεσμό του μεικτού φλεβικού αίματος, όπως υπολογίζεται από τον κορεσμό O₂ της άνω και κάτω κοίλης φλέβας, υποδηλώνοντας πως το «ανώμαλο» στεφανιαίο αγγείο καταλήγει στο δεξιό κόλπο. Ο λόγος πνευμονικής προς συστηματική ροή

Ημερ. παραλαβής
εργασίας:
8 Μαΐου 2009·
Ημερ. αποδοχής:
18 Ιανουαρίου 2010

Διεύθυνση
Επικοινωνίας:
Παύλος Ν. Στουγιάννος

Βασιλίδος 27,
121 31, Αθήνα,
e-mail:
pstougiannos@gmail.com



Εικόνα 1. Δεξιά πρόσθια λοξή προβολή (RAO) της αριστερής στεφανιαίας αρτηρίας. Ένα ευμέγεθες και ελικομένο αγγείο (βέλος) εκφύεται από το άπω τμήμα του στελέχους της αριστερής στεφανιαίας αρτηρίας (LM), ακολουθεί αρχικά την πορεία της περισπωμένης αρτηρίας εγγύς και στη συνέχεια καταλήγει στις δεξιές κοιλότητες. LAD=πρόσθιος κατιόντας, LM=στέλεχος αριστερής στεφανιαίας αρτηρίας.

(Q_p/Q_s) υπολογίστηκε σε 1,2, που εκφράζει μικρή αρτηριοφλεβική επικοινωνία.

Στη συνέχεια ο ασθενής υποβλήθηκε σε μαγνητική τομογραφία καρδιάς για την πληρέστερη απεικόνιση της ανατομίας των στεφανιαίων αρτηριών. Επιβεβαιώθηκε η παρουσία ευμεγέθους αγγείου που εκφύεται από το άπω τμήμα του στελέχους της αριστεράς στεφανιαίας αρτηρίας και ακολουθώντας πορεία μεταξύ της αορτής και του αριστερού κόλπου καταλήγει στη συμβολή της άνω κοίλης φλέβας με το δεξιό κόλπο (Εικόνα 2). Ο λόγος Q_p/Q_s υπολογίστηκε σε 1,3, παρόμοια τιμή με αυτή που ανευρέθει κατά τον καρδιακό καθετηριασμό.

Καθώς τα συμπτώματα του ασθενούς ήταν μάλλον άτυπα, έγινε υπερηχοκαρδιογραφική δοκιμασία κόπωσης (stress echo) με δοβουταμίνη για τον καθορισμό της κλινικής σημασίας της αρτηριοφλεβώδους επικοινωνίας. Κατά τη διενέργεια του πλήρους πρωτοκόλλου της δοκιμασίας (χορήγηση δοβουταμίνης έως 40 $\mu\text{g}/\text{Kg}/\text{min}$) δεν διαπιστώθηκαν τμηματικές διαταραχές κινητικότητας, και αποφασίστηκε να μην επιχειρηθεί η σύγκλιση της επικοινωνίας, με χειρουργική ή διαδερμική προσέγγιση. Κατά την βιμηνή

παρακολούθηση ο ασθενής ήταν ασυμπτωματικός, με καλό επίπεδο φυσικής δραστηριότητας.

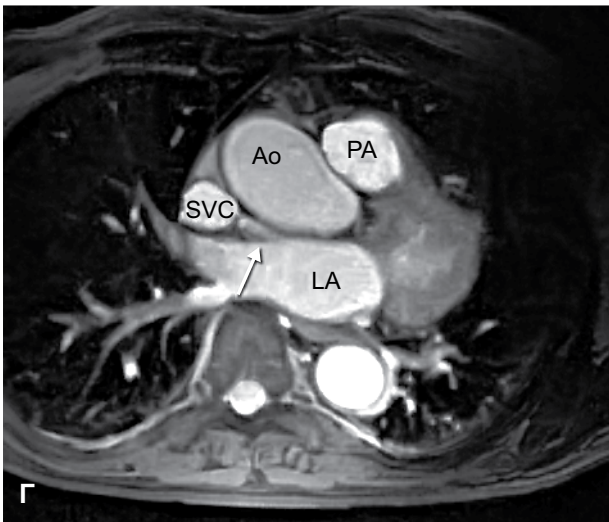
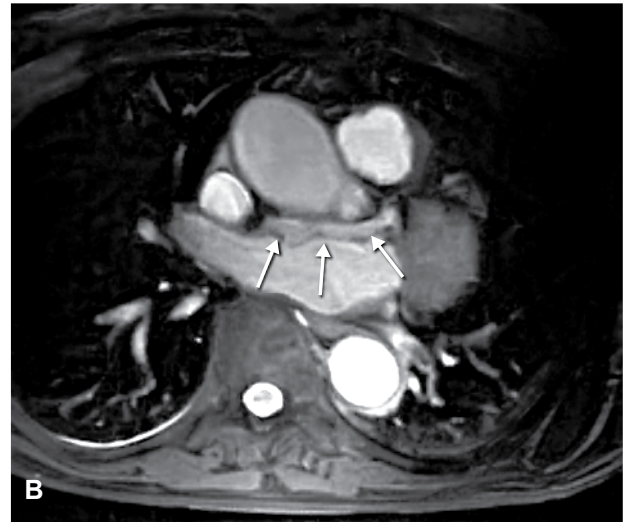
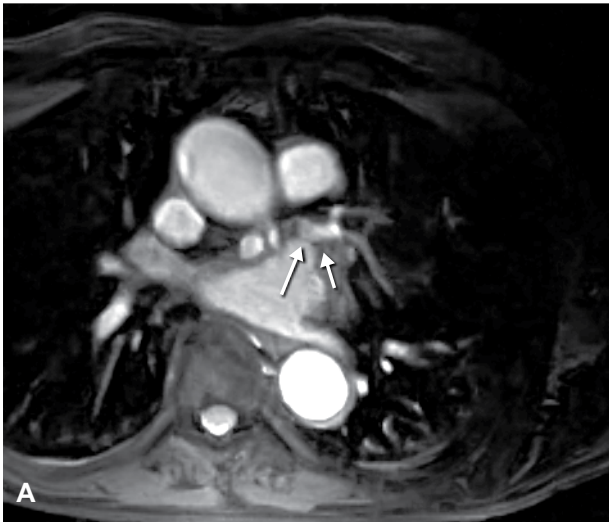
Συζήτηση

Η επικοινωνία των στεφανιαίων αρτηριών (coronary artery fistula-CAF) αποτελεί μια ανώμαλη επικοινωνία μιας επικαρδιακής στεφανιαίας αρτηρίας με μια καρδιακή κοιλότητα, ένα μεγάλο αγγείο (πνευμονική αρτηρία ή φλέβα, κοίλη φλέβα) ή άλλη αγγειακή δομή (μεσοπλεύριες αρτηρίες, στεφανιαίος κόλπος).

Σε μεγάλη μελέτη με περίπου 33.000 ασθενείς που υποβλήθηκαν σε στεφανιογραφία, CAF βρέθηκε στο 0,1%.^{1,2} Οι CAF από τη δεξιά στεφανιαία είναι περισσότερες συχνές από την αριστερή στεφανιαία αρτηρία, ενώ άνω του 90% των επικοινωνιών παροχετεύεται στη φλεβική επικοινωνία.^{1,3} Οι περισσότερες CAF είναι μονήρεις, αλλά έχουν αναφερθεί και περιστατικά με παρουσία πολλών CAF στον ίδιο ασθενή.⁴ Οι επικοινωνίες των στεφανιαίων μπορεί να είναι συγγενείς και να συνοδεύουν άλλες συγγενείς ανωμαλίες της καρδιάς, ή να δημιουργούνται αργότερα στη ζωή σαν αποτέλεσμα θωρακικής κάκωσης.⁵

Η ηλικία στην οποία διαγιγνώσκονται CAF ποικίλλει σημαντικά. Πολλές CAF είναι μικρές και ανευρίσκονται τυχαία κατά τη διάρκεια μιας στεφανιογραφίας, ενώ άλλες ανευρίσκονται κατά τη διερεύνηση συνεχούς φυσημάτος, στηθάγχης, οξέος εμφράγματος μυοκαρδίου, αιφνιδίου καρδιακού θανάτου, συμφορητικής καρδιακής ανεπάρκειας, ενδοκαρδίτιδας, αγγειακού εγκεφαλικού επεισοδίου, αρρυθμιών ή συνδρόμου άνω κοίλης φλέβας. Μερικά από τα συμπτώματα αποδίδονται στην ποσότητα του αίματος που μεταφέρεται από τη συστηματική στην πνευμονική κυκλοφορία, ενώ άλλα σε υποάρδευση των στεφανιαίων λόγω φαινομένου υποκλοπής. Μυοκαρδιακή ισχαιμία έχει επιβεβαιωθεί σε αρκετούς ασθενείς με CAF, χωρίς σημαντικές αθηρωματικές στενώσεις των στεφανιαίων αρτηριών.

Στη διοδιάστατη και έγχρωμη Doppler υπερηχοκαρδιογραφική μελέτη μπορεί να απεικονιστεί διάταση της προσβεβλημένης στεφανιαίας αρτηρίας, παρότι η απεικόνιση των στεφανιαίων καθώς και η διευκρίνιση της θέσης παροχέτευσης της επικοινωνίας είναι συχνά δυσχερές στους ενήλικες.⁶ Η μαγνητική τομογραφία καρδιάς συμβάλλει στη επιβεβαίωση της διάγνωσης, καθώς απεικονίζονται συνήθως με ευκρίνεια τόσο τα εγγύς τμήματα των στεφανιαίων όσο και η fistula σε όλο το μήκος της.^{7,8} Λειτουργικές δοκιμασίες, όπως το σπινθηρογράφημα αιματώσεως



Εικόνα 2. Εικόνες κατά το εγκάρσιο επίπεδο από τρισδιάστατη υψηλής ευκρίνειας μαγνητική στεφανιογραφία με συγχρονισμό με τις αναπνευστικές κινήσεις. Απεικονίζεται ένα ανώμαλο αγγείο (βέλη) που εκφύεται από το άνω τμήμα του στελέχους της αριστερής στεφανιαίας αρτηρίας, (Α), πορεύεται μεταξύ της αορτής και του αριστερού κόλπου (Β) και καταλήγει στην εκβολή της άνω κοίλης φλέβας στο δεξιό κόλπο (Γ). Ao=αορτή, LA=αριστερός κόλπος, SVC= άνω κοίλη φλέβα, PA= πνευμονική αρτηρία.

μυοκαρδίου και το stress echo, μπορούν να χρησιμοποιηθούν για την ανάδειξη ή μη ισχαιμίας, προ και μετά της θεραπείας.⁹ Πρόσφατα, η αξονική στεφανιογραφία πολλαπλών τομών (MDCT) έχει επιτύχει την άριστη απεικόνιση ακόμα και των άνω τμημάτων των στεφανιαίων αρτηριών και των κλάδων τους, και μπορεί να χρησιμοποιηθεί για την εκτίμηση των CAF.^{10,11}

Η φυσική ιστορία των επικοινωνιών των στεφανιαίων ποικίλλει,³ με μεγάλες περιόδους σταθερότητας σε μερικούς ασθενείς και απότομη ή πιο βαθμιαία εμφάνιση συμπτωματολογίας σε άλλους. Η αυτόματη σύγκλιση της επικοινωνίας είναι σπάνια, αλλά μπορεί να συμβεί σε μικρές CAF. Μικρές επικοινωνίες των στεφανιαίων αρτηριών σε ένα ασυμπτωματικό ασθενή μπορεί να παρακολουθούνται χωρίς παρέμβαση. Οι περισσότερες CAFs μεγαλώνουν με την

πάροδο του χρόνου και απαιτείται επιδιόρθωση, είτε διαδερμικά είτε χειρουργικά. Η φαρμακευτική αγωγή για συμπτωματική ανακούφιση χρησιμοποιείται μέχρι την ολοκλήρωση της διαγνωστικής προσέγγισης και την επεμβατική αντιμετώπιση. Προφύλαξη για ενδοκαρδίτιδα συνιστάται σε όλους τους ασθενείς με CAF. Η επεμβατική αντιμετώπιση συνιστάται σε συμπτωματικούς ασθενείς, σε ευμεγέθεις CAF και σε ασθενείς με ευρήματα μυοκαρδιακής ισχαιμίας ή πνευμονική υπέρταση χωρίς σύνδρομο Eisenmenger ή συμφορητική καρδιακή ανεπάρκεια. Άλλες ενδείξεις σύγκλισης CAF είναι οι αρρυθμίες, η λοιμώδης ενδοκαρδίτιδα και η ρήξη μιας CAF με εμφάνιση καρδιακού επιπωματισμού. Τέλος, δεν είναι σαφές εάν ενδείκνυται η σύγκλιση μιας CAF σε ασυμπτωματικούς ασθενείς.

Οι σύγχρονες επιλογές επεμβατικής αντιμετώ-

πισης των CAFs περιλαμβάνουν τη μεμονωμένη χειρουργική απολίνωση της CAF (με ή χωρίς εξωσωματική κυκλοφορία), χειρουργική απολίνωση της CAF σε συνδυασμό με αορτοστεφανιαία παράκαμψη, και τη διαδερμική σύγκλειση.¹²⁻¹⁵ Η έλευση των ελάχιστα επεμβατικών διαδερμικών τεχνικών έχει διευρύνει τις ενδείξεις σύγκλεισης των CAF. Οι συσκευές που χρησιμοποιούνται για τη διαδερμική σύγκλειση είναι διάφορα υλικά εμφολισμού, όπως ελάσματα, σπειράματα, μπαλόνια, κ.ά. (Gianturco coils, detachable balloons, polyvinyl alcohol foams and plug devices). Οι διαδερμικές τεχνικές έχουν μικρότερο χρόνο νοσηλείας, λιγότερες επιπλοκές και μικρότερη θνητότητα συγκριτικά με τη χειρουργική επέμβαση.

Στην περίπτωση του ασθενούς που παρουσιάζουμε η επικοινωνία ήταν μάλλον μικρή, οι διαστάσεις και η λειτουργικότητα της αριστεράς κοιλίας ήταν φυσιολογικές και δεν υπήρχαν ενδείξεις μυοκαρδιακής ισχαιμίας, όπως έδειξε η υπερηχοκαρδιογραφική δοκιμασία κόπωσης με δοβουταμίνη. Με βάση τα παραπάνω στοιχεία, θεωρήθηκε ότι δεν υπήρχαν σαφείς ενδείξεις επεμβατικής αντιμετώπισης και ο ασθενής τέθηκε μόνο σε φαρμακευτική αγωγή και η μέχρι τώρα πορεία του είναι ομαλή.

Συμπερασματικά, οι αρτηριοφλεβώδεις επικοινωνίες των στεφανιαίων αρτηριών είναι σπάνιες ανωμαλίες, που διαγιγνώσκονται συχνά τυχαία, κυρίως με τη στεφανιογραφία και σπανιότερα με το υπερηχοκαρδιογράφημα. Οι νεότερες απεικονιστικές τεχνικές (MDCT και MRI καρδιάς) είναι ιδιαίτερα χρήσιμες στη διάγνωση των CAFs. Η επιλογή του είδους της επεμβατικής αντιμετώπισης (διαδερμική ή χειρουργική), εφόσον απαιτείται, θα βασιστεί στα ανατομικά και λειτουργικά χαρακτηριστικά της CAF.

Βιβλιογραφία

1. Vavuranakis M, Bush CA, Boudoulas H. Coronary artery

- fistulas in adults: incidence, angiographic characteristics, natural history. *Cathet Cardiovasc Diagn.* 1995; 35: 116-120.
2. Chiu CZ, Shyu KG, Cheng JJ, et al. Angiographic and clinical manifestations of coronary fistulas in Chinese people: 15-year experience. *Circ J.* 2008; 72: 1242-1248.
3. Qureshi SA. Coronary arterial fistulas. *Orphanet J Rare Dis.* 2006; 1: 51.
4. Strange JW, Bucciarelli-Ducci C, Mathur A, Pennell DJ. Images in cardiovascular medicine. Multiple coronary fistulae: a cause of subendocardial ischemia. *Circulation.* 2008; 117: 853-856.
5. Ikaheimo MJ, Takkunen JT. Fistula from coronary artery to pulmonary artery after blunt trauma to chest. *Chest.* 1978; 74: 602-603.
6. Tousoulis D, Brill S, Aggelli K, et al. Left main coronary artery to left atrial fistula causing mild pulmonary hypertension. *Circulation.* 2001; 103: 2028-2029.
7. Parga JR, Ikari NM, Bustamante LN, Rochitte CE, de Avila LF, Oliveira SA. Case report: MRI evaluation of congenital coronary artery fistulae. *Br J Radiol.* 2004; 77: 508-511.
8. Said SA, Hofman MB, Beek AM, van der Werf T, van Rossum AC. Feasibility of cardiovascular magnetic resonance of angiographically diagnosed congenital solitary coronary artery fistulas in adults. *J Cardiovasc Magn Reson.* 2007; 9: 575-583.
9. Oshiro K, Shimabukuro M, Nakada Y, et al. Multiple coronary LV fistulas: demonstration of coronary steal phenomenon by stress thallium scintigraphy and exercise hemodynamics. *Am Heart J.* 1990; 120: 217-219.
10. Versaci F, Del Giudice C, Sperandio M, Simonetti G, Chiariello L. A case of coronary artery fistula visualized by 64-slice multidetector CT. *Nat Clin Pract Cardiovasc Med.* 2009; 6: 57-60.
11. Zeina AR, Rosenschein U, Barmeir E. Giant coronary-pulmonary artery fistula with multiple saccular aneurysms: multidetector CT evaluation. *Heart.* 2008; 94: 277.
12. Armsby LR, Keane JF, Sherwood MC, Forbess JM, Perry SB, Lock JE. Management of coronary artery fistulae. Patient selection and results of transcatheter closure. *J Am Coll Cardiol* 2002; 39: 1026-1032.
13. Gowda RM, Vasavada BC, Khan IA. Coronary artery fistulas: clinical and therapeutic considerations. *Int J Cardiol.* 2006; 107: 7-10.
14. Latson LA. Coronary artery fistulas: how to manage them. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2007; 70: 110-116.
15. Said SA, de Voogt WG, Hamad MS, Schonberger J. Surgical treatment of bilateral aneurysmal coronary to pulmonary artery fistulas associated with severe atherosclerosis. *Ann Thorac Surg.* 2007; 83: 291-293.