

## 心筋血液灌流解析により虚血部位が明らかとなった動脈管開存症に合併した冠状動脈瘻の1例

## Regional myocardial perfusion abnormality detected by digital subtraction angiography in a case of patent ductus arteriosus with coronary arterial fistulae

武田 徹  
松田 光生  
赤塚 孝雄\*  
桑子 賢司  
小川 剛  
鯨坂 隆一  
垣花 昌明  
杉下 靖郎  
伊藤 巖  
秋貞 雅祥

Tohoru TAKEDA  
Mitsuo MATSUDA  
Takao AKATSUKA\*  
Kenji KUWAKO  
Takesi OGAWA  
Ryuichi AJISAKA  
Masaaki KAKIHANA  
Yasuro SUGISHITA  
Iwao ITO  
Masayoshi AKISADA

### Summary

A 19-year-old woman with patent ductus arteriosus and increasingly severe chest pain received various examinations including exercise stress radionuclide test, which revealed hypokinesia and decreased myocardial perfusion in the apex and left ventricular dilatation. Conventional selective coronary arteriography and newly-developed ECG synchronized digital subtraction angiography (DSA) were performed to identify the genesis of her myocardial ischemia.

Selective coronary arteriography revealed congenital coronary arterial fistulae in the right and left coronary arteries. The largest fistula was observed around the obtuse marginal artery terminating in the left ventricle. Although stenosis of the left circumflex and left anterior descending arteries (LAD) were not observed, the LAD appeared to be hypoplastic. Hypoplasia of the LAD and the steal phenomenon by arterial fistula could have been responsible for the myocardial ischemia in the apex, but this method did not clearly reveal the area and the degree of myocardial ischemia in the apex.

Sequentially subtracted images during the arterial and capillary phases were obtained by utilizing ECG-synchronized DSA for selective coronary arteriography. For these images, densitometric analysis

筑波大学 臨床医学系  
\*同 基礎医学系  
茨城県新治郡桜村 (〒305)

Institute of Clinical Medicine, \*Institute of Basic  
Medical Sciences, University of Tsukuba, Sakura-  
mura, Nilhari-gun, Ibaraki 305

Received for publication May 14, 1984; accepted June 1, 1984 (Ref. No. 28-35)

was adapted to the myocardial region, i.e. circumferential densitometry using 21 segments around the left ventricular wall. Decreased myocardial perfusion was clearly demonstrated in the apex in capillary phase images. Moreover, circumferential analysis provided detailed information about the area and the degree of impaired peripheral circulation in the myocardium. This analysis by DSA may prove useful for evaluating myocardial perfusion abnormalities.

### Key words

Congenital coronary arterial fistulae  
Digital subtraction angiography

Patent ductus arteriosus  
Steal phenomenon

Myocardial perfusion abnormality

## はじめに

心筋血液灌流状態の定量的な解析は、特に虚血性心疾患の診断に有用かつ不可欠なものと考えられる。我々は心電図信号と同期された経動脈的なデジタル・サブトラクション・アンジオグラフィ（DSA）手法を冠状動脈造影に適用し、心筋血液灌流状態を経時的に動脈相、毛細管相、静脈相に分けて描出し、虚血部位の同定と、その定量的解析を試みてきた<sup>1,2)</sup>。我々は最近、動脈管開存症に合併した先天性冠状動脈瘻の1例にこの手法を適用して解析を行い、冠動脈瘻に伴う心筋血液灌流異常の定量的評価に非常に役立つことを経験したので、この症例についての解析を報告する。

## 症例の呈示

症例：19歳，女性

主訴：動脈管開存症の精査，前胸部痛

家族歴：祖母に糖尿病

現病歴：幼時より心臓が悪いと言われた。中学生頃より、時々前胸部圧迫感が出現し、10～20秒間持続した。1983年5月頃、工作中、左肩の重圧感が出現し、最近、発作の頻度が増加する傾向に気付いていた。近医を受診し、動脈管開存症と診断され、精査を目的として当院に入院した。

入院時現症：身長 153 cm，体重 50 Kg，脈拍 70 拍/分，整，血圧 120/80 mmHg。聴診上、胸骨左縁第2肋間に最強点を有する Levine IV～V/VI の機械様連続性雑音を聴取した。呼吸音、

その他に特記すべきことなし。

胸部 X 線写真：心胸郭係数 48%，異常陰影を認めなかった。

血液：RBC  $461 \times 10^4$ ，Hb 10.2 g/dl，Ht 31.1%。

心音図：胸骨左縁第1～2肋間に、II音をピークとし、I音より離れた紡錘形の連続性雑音が検出された。

心エコー図：左室腔の拡大（左室拡張終期内径 70 mm）と、内径約 6～8 mm の動脈管開存を認めた。

心電図：トレッドミル負荷 5.5 Mets 3分で、心拍数は 87 から 165 拍/分、血圧は 122/70 から 130/54 mmHg へと変化した。また、ST低下が II, III, aVF (0.10 mV), V<sub>3-6</sub> (0.15～0.20 mV) にみられた (Fig. 1)。

<sup>201</sup>Tl 心筋シンチグラム：自転車エルゴメーター負荷直後像で、心尖部にごく軽度の低灌流領域が描出され、負荷3時間後像で心尖部の低灌流状態は改善し、再分布現象が認められた (Fig. 2)。

心 RI アンジオグラフィ（first pass 法）：機能イメージで心尖部の hypokinesis が明瞭に描出され、負荷により、左室駆出分画は 53% から 51% へと、ごく軽度に低下した。また、動脈管開存症手術後の左室駆出分画には著しい変化は認められなかった (Fig. 3)。

心カテーテル検査：

i) 左室造影上、左室駆出分画は 50% と軽度に低下し、左室腔の拡大と心尖部の hypokinesis が認められた。

ii) 左冠状動脈造影では、回施枝や前下行枝

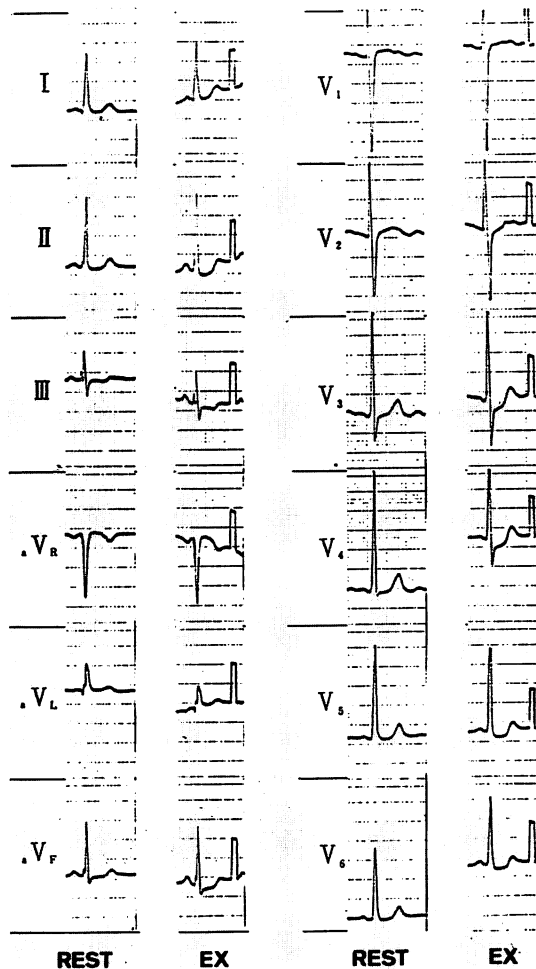


Fig. 1. Electrocardiogram.

ST depression is shown in II, III, aVF, and V<sub>3-6</sub> during treadmill stress test (5.5 Mets, 3 min) (Ex).

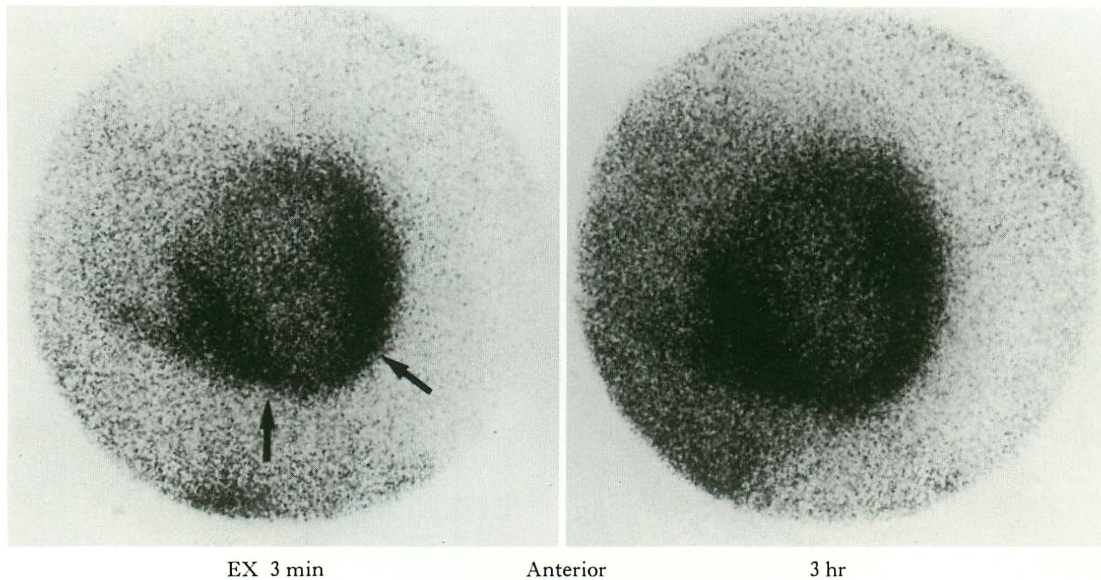
に明らかな狭窄とか閉塞は認められなかったが、前下行枝に形成不全傾向が認められた。回旋枝と前下行枝の境から分岐する鈍縁枝 (obtuse marginal artery) に沿い、細い血管が網状に広がり、左室腔に流出する広範な冠状動脈瘻が認められた (Fig. 4)。また、14番の冠状動脈枝末梢より、冠状動脈瘻の下端に向う灌流も見られた。回旋枝より分枝し、冠状静脈洞に直接灌流している冠状動脈瘻も見られた。

iii) 右冠状動脈造影では、conus branch 末梢から右房へ流出する、小さな冠状動脈瘻がみら

れた。

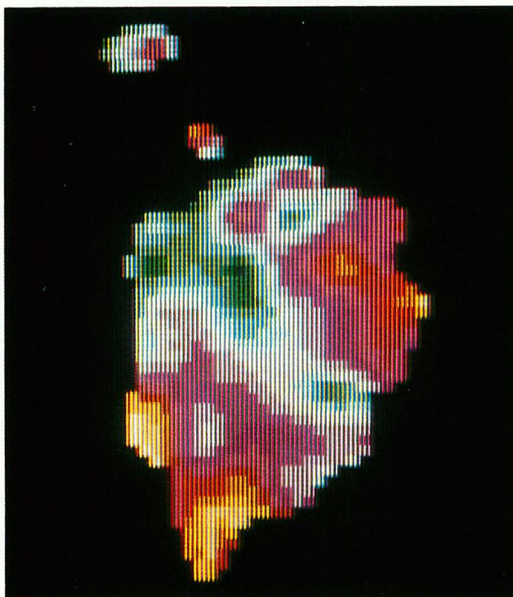
iv) 動脈管開存症の短絡率は 61% であった。

DSA 法: 左右の冠状動脈より選択的に造影剤 (76% Urografin, 10 ml) を用手的に注入し、右前斜位 30 度で撮影した。画像信号と生体信号同時記録装置を用い、透視モードで、造影剤注入前 3 心拍目より、心電図信号を同期信号とした画像を VTR に記録し、得られた画像を 512×512×8 ビットにデジタル化した。造影剤注入前後の像について動画処理システムにより R 波の時相に対応した画像間の差分を行い、経時的な差分画像



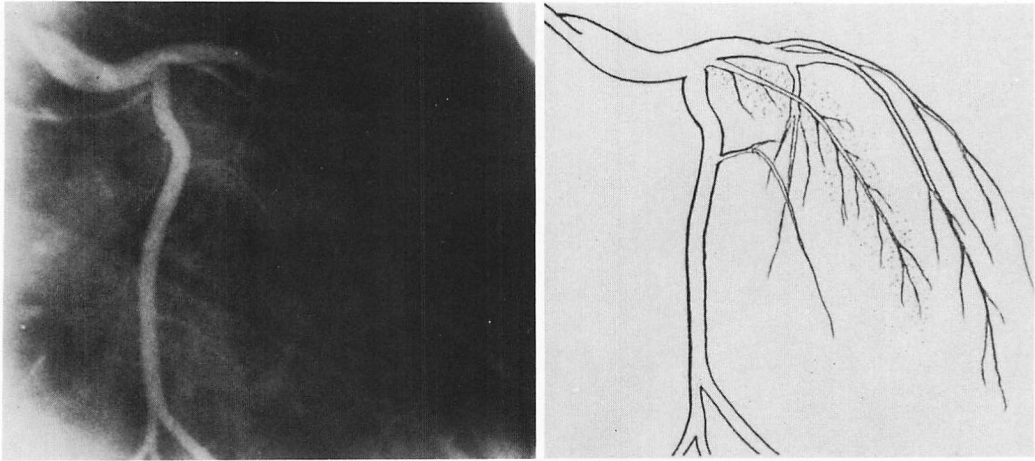
**Fig. 2. Thallium 201 myocardial scintigrams.**

After bicycle ergometer stress test, a slightly low perfusion area is noted in the apex (between the 2 arrows), and it disappears at 3 hours later.



**Fig. 3. Radionuclide angiogram (first pass method).**

This functioning image at the anterior projection shows hypokinesis in the apex (white and green).



**Fig. 4. Left coronary arteriogram (RAO 30°) and its schema of the coronary artery.**

Congenital coronary arterial fistula is shown around the obtuse marginal artery. Hypoplasia of the left anterior descending artery is also demonstrated.

を得た。その後、その画像に対し、心筋壁に沿った定量的解析を加えた。

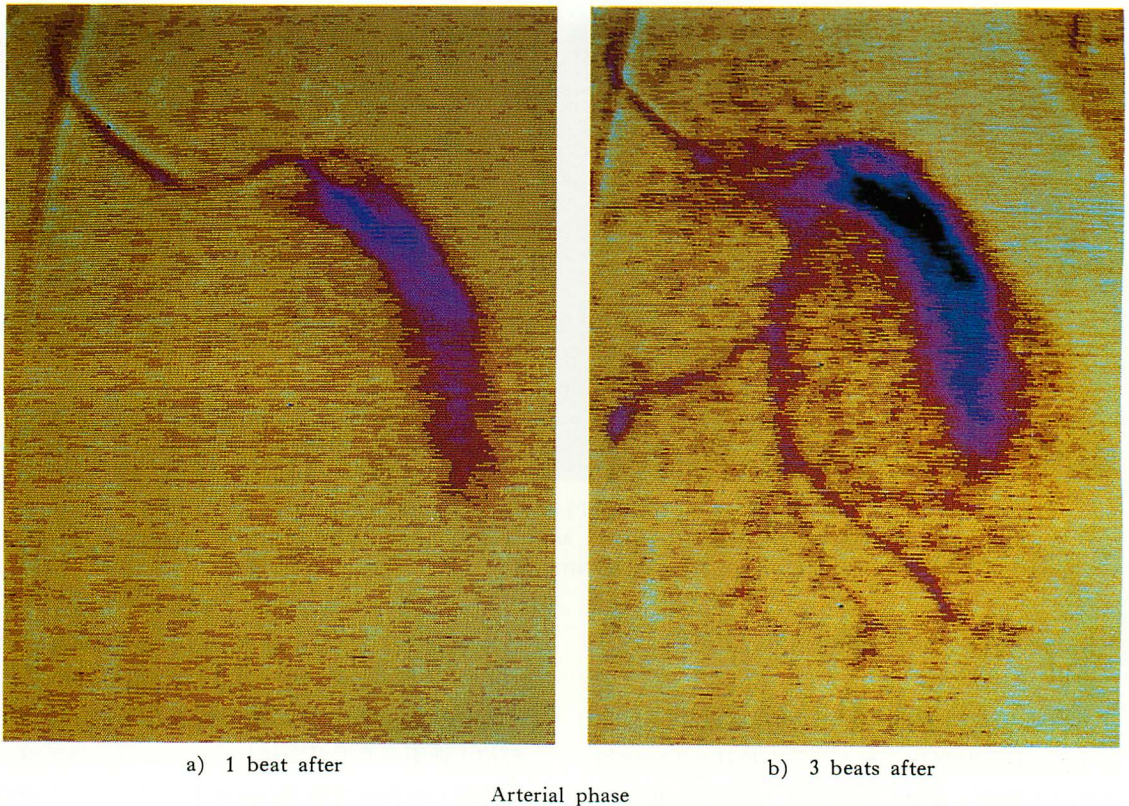
i) 左冠状動脈造影：造影剤注入後 1 心拍目と 3 心拍目の動脈相、および 7 心拍目の毛細管相の経時的画像を **Fig. 5** に示す。流量の程度は疑似カラーで表示し、流量の多いものから順に、黒、赤、黄、白色としてある。動脈相の 1 心拍目では、鈍縁枝の著明な冠状動脈瘻に造影剤のほとんどが灌流する状態が認められた。3 心拍目の動脈相では、本冠状動脈瘻と、回旋枝分枝から冠状静脈洞へ灌流する冠状動静脈瘻も描出された。前下行枝は冠状動脈瘻に重なり、この像からは前下行枝の狭窄・閉塞の有無の判定は出来なかった (**Fig. 5 b**)。毛細管相では、左室側壁の広範な冠状動脈瘻は、血液灌流が非常に豊富であるため青色に染まり、一方、hypokinesis であった心尖部領域は黄色に表示され、同部位の灌流が相対的に減少している状態が画像上、明瞭に描出された。また、心尖部と冠状動脈瘻の境界部で正常心筋と考えられる部位は、赤色に表示された (**Fig. 5 c**)。

ここで、circumferential な心筋壁に沿った定量的な解析を行った。動脈相のカーブは造影剤注

入 1 心拍目で、冠状動脈瘻にだけ血液灌流が認められた。毛細管相のカーブは 7 心拍目のもので、冠状動脈瘻の部位と **Fig. 5 c** で赤色に示された部位の造影剤濃度が増加していた。冠状動脈瘻と心尖部の心筋血液灌流の相対比は 7.4 倍、正常心筋部と心尖部のそれは 3.1 倍であり、心尖部心筋の血液低灌流状態をより定量的に検出することが可能であった (**Fig. 6**)。

ii) 右冠状動脈造影：動脈相では動脈瘻が小さいため、明らかな冠状動脈瘻は認められなかった。毛細管相で下壁部の心筋は染まるが、心尖部の心筋には血液灌流が見られなかった。一方、右室壁の染まりも認められるため、下壁部の広がりは一見、大きく検出されていた (**Fig. 7**)。

iii) 左右冠状動脈造影による DSA の毛細管相の合成画像：心筋全体への血液灌流動態を描出することが可能であり、心尖部の心筋は黄色で示され、左右冠状動脈のいずれからも十分な心筋血液灌流がみられず、同部位の心筋血液灌流が相対的に減少し、虚血状態に陥りやすい状態を明瞭に描出することができた (**Fig. 8**)。



**Fig. 5. Sequential contrast enhanced images by digital subtraction angiography.**

Contrast materials were injected into the left coronary artery. Temporal images are represented at the arterial phase (1 and 3 beats after injection), and the capillary phase (7 beats after injection). Pseudocolor display (range of black, blue, red, yellow and white) is adapted for myocardial perfusion from high perfusion to low perfusion.

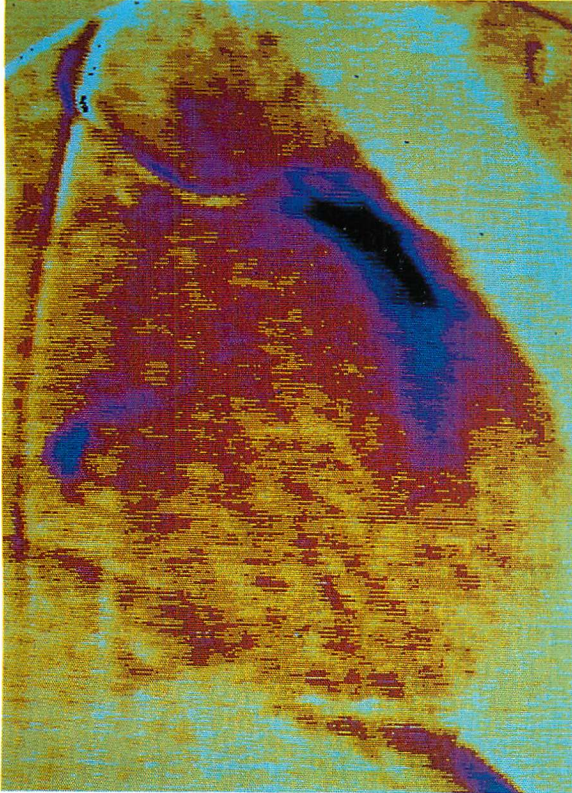
a, b: There is marked arterial fistula in the left ventricle and small arteriovenous fistula arising from the left circumflex artery and terminating in the coronary sinus at the arterial phase.

### 考 察

本症例は中学生頃より前胸部痛が増強し、この変化は動脈管開存症だけからは説明困難であった。この原因を検索するため、負荷心電図、心臓核医学的検査を行ったところ、負荷によりST低下がII, III, aVF, V<sub>3-6</sub>の各誘導に出現、負荷<sup>201</sup>Tl心筋シンチ像により、心尖部に一過性の低灌流領域が認められ、機能イメージで心尖部に強いhypokinesisが検出された。臨床所見および以上の検査結果から、心尖部領域の虚血性変化が

示唆された。

左室造影および冠状動脈造影では、左室駆出分画50%と軽度に低下し、心尖部に強いhypokinesisが認められた。冠状動脈に明らかな狭窄・閉塞は認められなかったが、前下行枝は形成不全を呈し、また回折枝分岐部より左室側壁に、冠状動脈瘻が広範に広がる網状の細い血管網として検出され、同枝末梢にも冠状静脈洞に直接灌流する冠状動脈瘻が描出された。また、右冠状動脈conus branchにも非常に小さな冠状動脈瘻があった。本症例は左右冠状動脈に冠状動脈瘻を



c) 7 beats after  
Capillary phase

c: Coronary arterial fistulae are clearly demonstrated in the left ventricle at capillary phase (blue). A relatively low myocardial perfusion area is observed in the apex (yellow). The normally perfused myocardium is observed between the arterial fistula and apex (red).

有し、そのうち最大の冠状動脈瘻が左室に流出するタイプのものであった。

先天性冠状動脈瘻は、冠状動脈が心内腔、冠状静脈洞、肺動脈、上大静脈に直接灌流し、左右シャントを伴うことが多い疾患である<sup>3~14)</sup>。その発生に関しては二つの型が考えられ<sup>4,5)</sup>、一つは肺動脈に流出部位がある場合で、冠状動脈と肺動脈が発生過程において動脈幹周囲環に生じる血管と結合し、低圧系である肺動脈への左右短絡が生じ、瘻が形成されるという考えである。他の一つは正常冠状動脈の発生過程の停止という考えで、正常の

発生過程では毛細管径まで縮小する肉柱間腔、あるいは心筋内類洞が発生途上のまま縮小せずに残り、冠状動脈と心腔内との圧較差により短絡を生じ、瘻孔を形成するという心腔内流出の型にあてはまるものである。Levin ら<sup>3)</sup>によると、流入冠状動脈は 50% が右冠状動脈、42% が左冠状動脈で、5% が両側性であり、流出部は右心系のもものが 90% を占め、右室 41%、右房 26%、肺動脈 14%、冠状静脈洞 7%、左房 5%、左室 3% である。本症例は両側の冠状動脈に冠状動脈瘻を伴い、最大の瘻孔が左室に流出するという珍しい型のものであった<sup>3,6,7)</sup>。

冠状動脈瘻の臨床症状は、無症状のものが多く、加齢とともに心不全、亜急性細菌性心内膜炎、スチール現象によると考えられる虚血性発作や心筋梗塞の頻度が増加する<sup>3~14)</sup>。本例のごとく 20 歳以下の症例に虚血性発作を伴う頻度は、3% と報告されている<sup>14)</sup>。

冠状動脈瘻の診断は、これまで選択的冠状動脈造影により行われて来たが、毛細管相まで含めた総合的な心筋血液灌流という面から、心筋虚血状態を明瞭に描出することは困難であった。しかし、近年臨床的に応用され始めた DSA 法を用いると、毛細管相における心筋の血液灌流低下部位の広がりとその程度を、非常に良く検出し得る。本症例に見られた冠状動脈瘻では、DSA 画像上、動脈相で、早期から造影剤による染まりが左室側壁に認められた。また、瘻孔により染まった病変部位はシネ・アンジオグラフィー法で示された領域よりも広く、後者の方法で検出できぬ細い血管網を良く描出することができた。毛細管相では、心尖部の心筋血液灌流は相対的に明瞭な低下を示し、他の検査で検出された心尖部の虚血性変化を説明する有力な手掛りとなった。DSA で描出された心尖部での相対的な低灌流状態の原因としては、前下行枝が形成不全であることに加え、冠状動脈瘻によるスチール現象が考えられる。さらに、左室腔の拡張と貧血も、同部位に hypokinesis を生じさせるほどの虚血状態を惹き

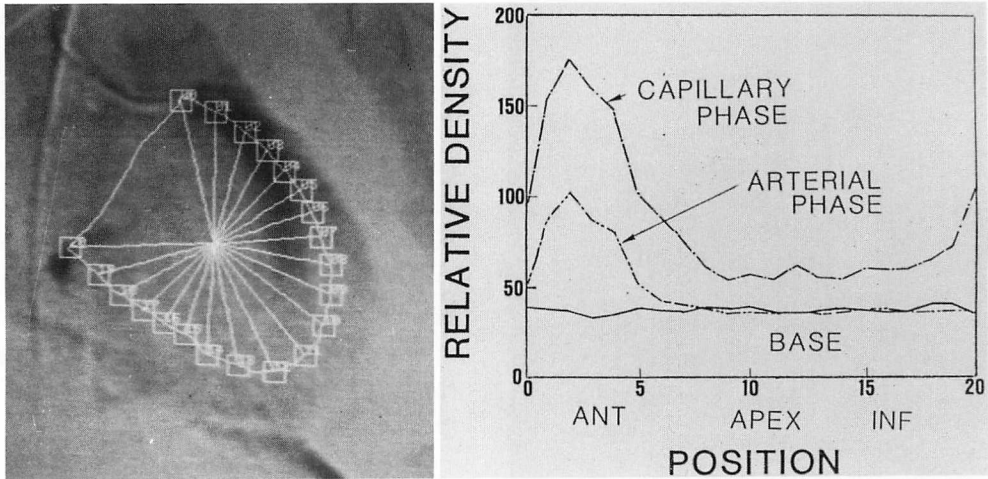


Fig. 6. Circumferential density curve of the image shown in Fig. 5-c.

Myocardial regional densitometry is performed for 21 local regions around the left ventricular wall. The area of decreased myocardial perfusion is quantitatively demonstrated at the apex.

起こした原因であろう。

DSA 手法による心筋の血液灌流解析法では、毛細管相の異常を明瞭に捉えることが可能である。本症例のごとく、広範、かつ細かい血管異常を有する冠状動脈瘻で、そのスチール現象などに基づく心筋低灌流状態をみごとに描出できる点で、この手法は、今後、虚血性心疾患診断上、将来性のあるものと考えられる。

#### ま と め

先天性冠状動脈瘻の臨床診断は、これまでシネ・アンジオグラフィー法により行われてきた。しかし、本症例に見られるような冠状動脈瘻に基づく末梢循環障害とその程度を、一般のシネ・アンジオグラフィー法で正確にとらえることは困難であった。今回、本症例に対し DSA 法とその定量的解析法を適用することによって、冠状動脈瘻の広がり、それにより惹き起こされたスチール現象によると考えられる心尖部の心筋血液低灌流状態を、ここに始めて定量的に検出することができた。

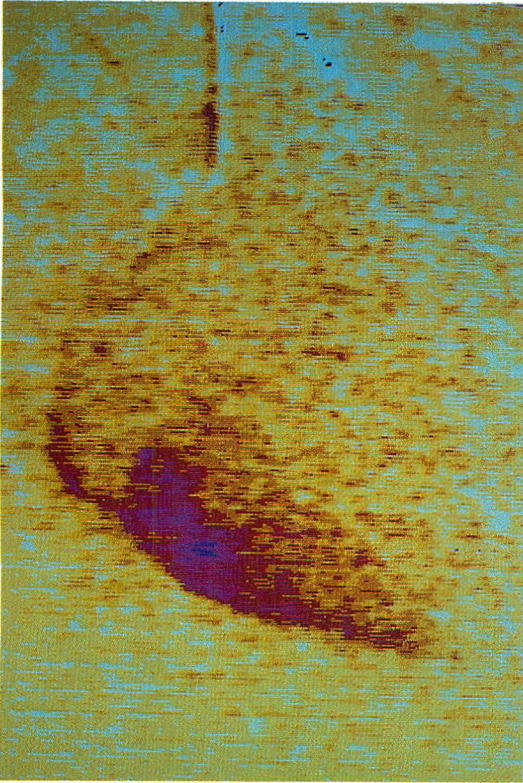
#### 要 約

動脈管開存症を有し、前胸部圧迫感が増強傾向を示す 19 歳の女性に、種々の運動負荷検査を加えたところ、心尖部領域の虚血性変化が疑われた。その原因を精査するため、従来行われてきた選択的冠状動脈造影、および新たに開発されたデジタル・サブトラクション・アンジオグラフィー (DSA) を施行した。

選択的冠状動脈造影法の結果、左右冠状動脈に先天性冠状動脈瘻が描出され、なかでも obtuse marginal artery 周辺に分布し、左室腔に流出している冠状動脈瘻は最大の瘻孔であり、同部位でかなり大きなスチール現象を生じている可能性が示唆された。さらに前下行枝は形成不全であったが、これらの所見だけでは心尖部の虚血性変化の程度を定量化しえず、また左室造影その他の検査で示された心尖部の異常を十分に説明することができなかった。

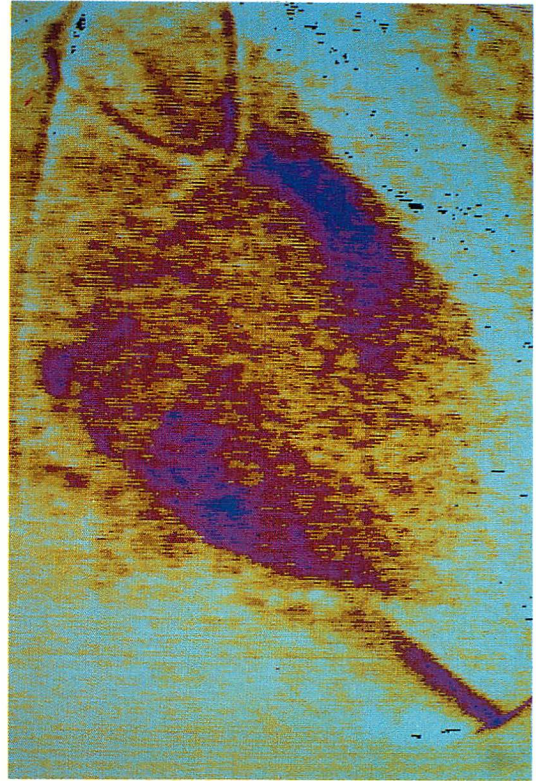
これらの点を解決するため、心電図に同期させた経動脈的 DSA 手法を冠状動脈造影に適用し、心筋血液灌流状態を経時的に動脈相、毛細管相に





**Fig. 7. Sequential contrast enhanced images of DSA.**

Contrast materials are injected into the right coronary artery. The myocardial perfusion image in the inferior wall and lateral wall of the right ventricle at the capillary phase is shown.



**Fig. 8. Superimposed images at the capillary phase.**

The images of Fig. 5-c and Fig. 7 are superimposed. Decreased apical myocardial perfusion is clearly demonstrated.

分けて描出，各画像について心筋部壁周に沿った定量的解析を試みた。その結果，心尖部に，特に毛細管相の画像で明らかな灌流欠損が描出された。また，これら画像における濃度変化の定量的解析により，この前下行枝の形成不全とスチール現象に由来する心尖部の末梢循環障害の範囲と程度を，より詳細に解析することができた。この手法は，今後，虚血性心疾患の診断に対し，将来性を有するものと考えられる。

本研究に多大の協力をしていただいた元筑波大学臨床医学系，現在岐阜県立多治見病院放射線科部長 大島統男先生に深く感謝いたします。

#### 文 献

- 1) Takeda T, Matsuda M, Akatsuka T, Kuwako K, Ogawa T, Ajisaka R, Sugishita Y, Ito I, Akisada M: A quantitative analysis of myocardial perfusion by digital subtraction angiography. *J Cardiography* 15: 13, 1985 (in Japanese)
- 2) Takeda T, Matsuda M, Akatsuka T, Ogawa T, Kuwako K, Sugishita Y, Akisada M: A quantitative estimation of myocardial perfusion abnormality. *Jpn Circ J* 48: 748, 1984 (abstr)
- 3) Levin DC, Fellows KE, Abrams HL: Hemodynamically significant primary anomalies of the coronary arteries, angiographic aspects. *Circulation* 58: 25, 1978
- 4) 阿部博幸，林田憲明，加納達二，桜井秀彦，脇屋義彦，長坂英雄，矢部喜正，相沢忠範，中島大和，三

武田, 松田, 赤塚, ほか

- 山博司, 北村和夫, 阿部正視, 天野 純, 渡辺幹夫, 田中 淳: 冠状動脈奇形の診断とその臨床的意義. 臨床放射線 **23**: 1431, 1978
- 5) 脇屋義彦, 友常一洋, 桜井秀彦, 加納達二, 北村和夫, 阿部博幸: 先天性冠状動脈瘻の16症例(選択的冠状動脈造影による検討). 心臓 **14**: 633, 1982
- 6) Rose AG: Multiple coronary arterioventricular fistulae. *Circulation* **58**: 178, 1978
- 7) Reddy K, Gupta M, Hamby RI: Multiple coronary arteriosystemic fistulas. *Am J Cardiol* **33**: 304, 1974
- 8) Sakakibara S, Yokoyama M, Takao A, Nogi M, Gomi H: Coronary arteriovenous fistula. *Am Heart J* **72**: 307, 1966
- 9) Morgan JR, Forker AD, O'sullivan MJ, Fosburg RG: Coronary arterial fistula. *Am J Cardiol* **30**: 432, 1972
- 10) Ogden JA, Stansel HC Jr: The anatomic variability of coronary arterial fistulae termination in the right and left atria. *Chest* **65**: 76, 1974
- 11) Kimbiris D, Kasparian H, Knibbe P, Brest AN: Coronary artery-coronary sinus fistula. *Am J Cardiol* **26**: 532, 1970
- 12) Floyd WL, Young WG, Johnsrude IS: Coronary arterial—left atrial fistula. *Am J Cardiol* **25**: 716, 1970
- 13) 水野杏一, 栗田 明, 細野清士, ゴフレッド ジンシニー, アレキサンドロ ジアンバトロメー: 先天性冠動脈奇形. 心臓 **14**: 887, 1982
- 14) Libertson RR, Sagar K, Berkoben JP, Weintraub RM, Levine FH: Congenital coronary arteriovenous fistula: Report of 13 patients, review of the literature and delineation of management. *Circulation* **59**: 849, 1979