

【症例報告】

冠攣縮性狭心症を合併した単冠動脈症の1例

妹尾篤史 武田博 田中寿一
小野田学 田中康之 陳勁一
栗須崇 瀧川和俊 谷口正幸
望月正武

東京慈恵会医科大学内科学講座循環器内科

(受付 平成17年10月14日)

A CASE OF SINGLE CORONARY ARTERY WITH VASOSPASTIC ANGINA

Atsushi SEO, Hiroshi TAKEDA, Toshikazu TANAKA,
Satoru ONODA, Yasuyuki TANAKA, Keiichi CHIN,
Takashi KURUSU, Kazutoshi TAKIKAWA, Masayuki TANIGUCHI,
and Seibu MOCHIZUKI

Division of Cardiology, Department of Internal Medicine, The Jikei University School of Medicine

A 39-year-old man with a 3-year history of chest pain at rest in the early morning and while walking was suspected to have ischemic heart disease and was referred to our department. Coronary angiography showed a single coronary artery arising from the left coronary sinus, and a right coronary artery originating from the proximal part of the left main coronary artery and passing between the ascending aorta and the pulmonary trunk (Lipton type LII-B). No significant coronary stenosis was observed. The acetylcholine provocation test showed vasospastic total occlusion at segment 7 of the left anterior descending artery and segment 12 of the left circumflex artery, along with chest pain and electrocardiographic ST segment elevation. Accordingly, vasospastic angina was diagnosed. Treatment with oral calcium antagonist and nitrates was started, and symptoms did not recur thereafter. Single coronary artery is a rare but clinically significant congenital anomaly that may produce such complications as sudden death, angina pectoris, and myocardial infarction, even in the absence of other cardiac anomalies. Vasospasm is believed to be a cause of such symptoms, but coronary spasm associated with a single coronary artery is rarely reported. This case suggests a possible cause of sudden death in patients with a single coronary artery.

(Tokyo Jikeikai Medical Journal 2006 ; 121 : 43-7)

Key words: single coronary artery, spasm, acetylcholine, sudden death

I. はじめに

単冠動脈症は稀な冠動脈奇形の1つであり、約40%に他の先天性心疾患を合併する¹⁾が、合併しない場合は通常は無症候である。しかし他の心奇

形の合併がない場合でも、正常冠動脈の場合と比べると、突然死や狭心症、心筋梗塞の発症が多いことが報告されている²⁾。冠攣縮もこれらの原因の1つと考えられるが、単冠動脈症に合併した冠攣縮の報告は少ない。今回我々は、冠攣縮性狭心

症が疑われ冠動脈造影を施行し、冠攣縮誘発試験によって冠攣縮を確認し得た単冠動脈症を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

II. 症 例

症例：39歳，男性

主訴：胸痛

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

冠動脈危険因子：喫煙 20本/日，20年間

現病歴：約3年前より，早朝の安静時および通勤途中の歩行時に前胸部痛を認めるようになり，近医を受診した。心電図，運動負荷心電図およびホルター心電図にて異常を認めず，経過観察されていた。その後も月に1-2回の胸痛を認めていたが，硝酸薬にて速やかに改善していた。今回約10日前に2日続けて早朝の安静時に胸痛を認めたため，近医を受診したところ，心電図でV₂，V₃のT波の陰転化を認めた(Fig. 1A)。同時に施行した心エコー検査，血液検査では異常を認めず，狭心症の疑いにて当科紹介となり入院となった。

入院時現症：身長158cm，体重56kg，体温36.3°C，血圧124/66mmHg，脈拍66/分・整，結膜に貧血，黄疸なし，胸部に心雑音，過剰心音，肺雑音を聴取せず，腹部に異常所見なし，下腿浮腫なし。

入院時検査成績：血算ではWBC 9,200/ μ l，

RBC 473万/ μ l，Hb 14.4g/dl，Ht 43.3%，Plt 32.7万/ μ lと軽度の白血球増多を認めた。生化学ではGOT 15IU/L，GPT 15IU/L，CK 93IU/L，CK-MB 6IU/L，BUN 13mg/dl，Cr 1.0mg/dl，Na 140mmol/L，K 3.9mmol/L，Cl 103mmol/L，TC 204mg/dl，TG 65mg/dl，HDL-C 58mg/dl，CRP 0.2mg/dlと明らかな異常は認められなかった。前医での入院10日前の心電図に認められたV₂，V₃の陰性T波は，入院時の心電図では改善していた(Fig. 1B)。胸部X線写真では心拡大はなく，肺野にも異常は認めなかった。心エコー検査では壁運動に異常はなく，各弁にも異常は認めなかった。

入院後経過：胸部症状は労作時よりも早朝の安静時に多く，前医で施行した運動負荷心電図検査では陰性であることから，冠攣縮性狭心症を疑い，入院翌日に冠動脈造影を施行した。まず左冠動脈造影を行ったところ，右冠動脈に相当する冠動脈が主幹部の近位部から起始しており，主幹部の遠位部で前下行枝と回旋枝に分岐していた。いずれの冠動脈にも器質的狭窄病変は認めなかった(Fig. 2)。この後，念のため右冠動脈洞で冠動脈の開口部を探ったが挿入はできず，大動脈造影によって他に冠動脈の開口を認めないことを確認し，左単冠動脈と診断した。また，多方向からの冠動脈造影と大動脈造影によって右冠動脈が上行

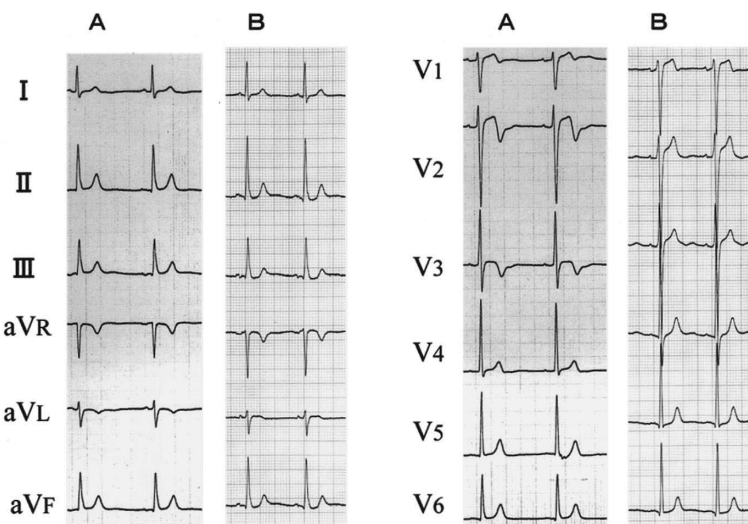


Fig. 1. Electrocardiograms on 10 days before admission (A) and on admission (B). Negative T wave in leads V₂₋₃ were observed on 10 days before admission, but these findings were improved on admission.

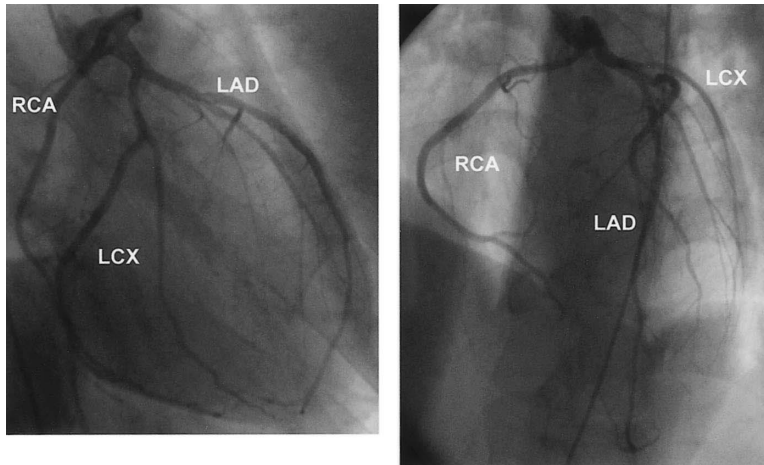


Fig. 2. Coronary angiography from the right oblique view (left) and left oblique view (right) showed a single coronary artery arising from the left coronary sinus, the right coronary artery originated from the proximal site of the left main coronary artery. No significant coronary stenosis was observed. RCA : right coronary artery, LAD : left anterior descending artery, LCX : left circumflex artery.

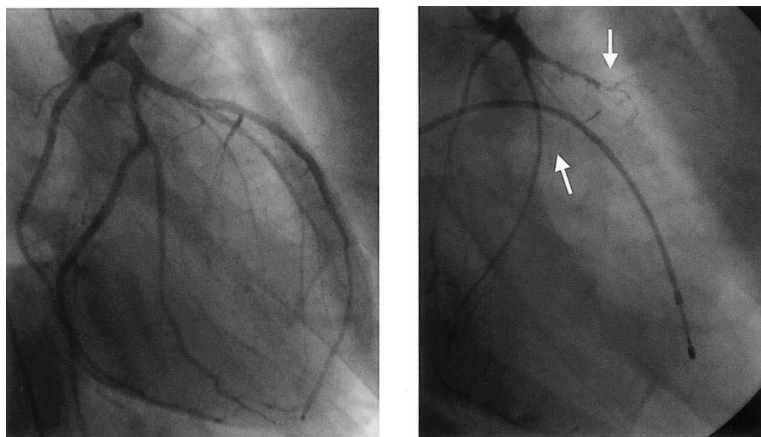


Fig. 3. Coronary angiography from the right oblique View before (left) and after (right) infusion of 20 μ g acetylcholine into the coronary artery. Total occlusion at segment 7 of the left anterior descending artery and segment 12 of the left circumflex artery were observed.

大動脈と肺動脈の間を走行していることが確認できた。冠攣縮誘発試験については単冠動脈であるため、主幹部の近位部や多枝に攣縮が誘発された際の重症不整脈、ショックの危険性も考慮された。しかし、これまでに出現した胸痛では重症不整脈やショックを思わせるような重症度の高いものはなく、硝酸薬にて速やかに改善していること、また本例は若年ということもあり、狭心症という診断に患者本人が強い違和感を覚えており、攣縮の証明を強く希望したこともあり、施行することとした。通常どおり体外式ペースメーカーを留置し

除細動器を準備の上、アセチルコリン 20 μ g を冠動脈内に投与したところ、胸痛が出現し、前下行枝 Seg. 7 および回旋枝 Seg. 12 が冠攣縮を起し完全閉塞が生じた (Fig. 3)。心電図では II, III, aVF, V3-V6 の ST 上昇と T 波の増高を認め (Fig. 4)、心室性期外収縮のショートランも出現した。徐脈性不整脈は出現せず、血圧の低下も軽度であった。直ちに硝酸イソソルビドを冠動脈内投与し、症状と心電図変化は改善した。以上から、冠攣縮性狭心症を伴った左単冠動脈症と診断した。左室造影では壁運動に異常は認められなかった。

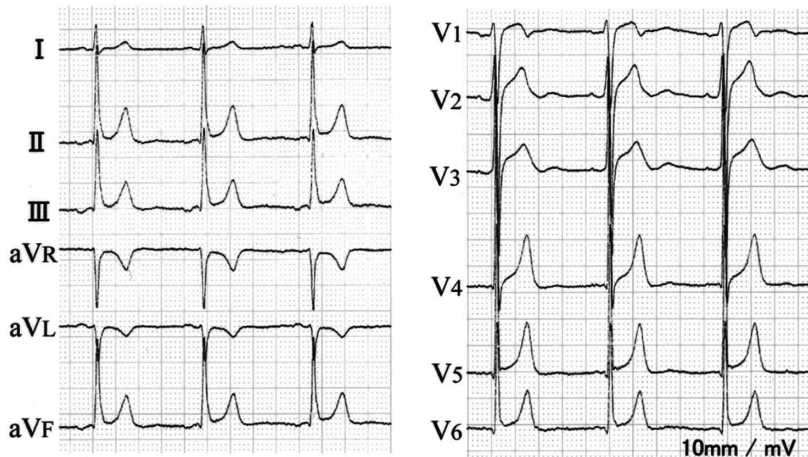


Fig. 4. Electrocardiograms after infusion of 20 μ g acetylcholine into the coronary artery showed ST segment elevation in leads II, III, aVF and V₃₋₆.

その後の治療としてニフェジピン徐放製剤 20 mg の就眠前投与と、硝酸イソソルビド徐放製剤 20 mg の朝、就眠前の 2 回投与を継続しているが、症状の出現は認めていない。また午前中に運動負荷タリウム心筋シンチグラフィを施行し虚血所見のないことを確認した。

III. 考 察

単冠動脈症は比較的稀な先天性冠動脈奇形であり、その定義は冠動脈の開口部が 1 つのみであり、その唯一の冠動脈によって心筋全体が血液の供給を受けているものとされる¹⁾。その頻度は、冠動脈造影を施行した症例の検討では、Yamanaka ら³⁾は 126,595 例のうち 56 例 (0.044%) に、Desmet ら⁴⁾は 50,000 例のうち 33 例 (0.066%) に単冠動脈症を認めている。

単冠動脈症の分類にはいくつかのものが存在するが、よく用いられる Lipton ら⁵⁾の提唱した分類によると、本症例では冠動脈は左冠動脈洞から起始し、左主幹部から起始する右冠動脈が上行大動脈と肺動脈の間を走行しているので LII-B となる。

単冠動脈症は他の心奇形を合併しなくても、突然死や狭心症、心筋梗塞など虚血性心疾患の合併¹⁾⁶⁾⁷⁾が報告されており、その臨床的意義が認識されるようになってきている。その機序としては、灌流領域に対して起始部が対側の冠動脈洞の場合に

分枝が心基部で鋭角に曲がっていること、主幹部に相当する部分が長く血管径が細いこと、1 本の冠動脈に対する流量負荷が大きいことから内皮障害が進み、冠動脈硬化へと進展しやすいことなどが挙げられている。また、本症例のように冠動脈が大動脈と肺動脈の間を走行するタイプでは、運動負荷時に圧迫されるためという説もあるが、肺動脈圧が冠動脈圧よりも低いことから、これを否定する意見もある⁶⁾。

冠攣縮も主要な原因の 1 つと考えられている。とくに主幹部や近位部での多枝の冠攣縮では、ショック、心室細動などの重症不整脈など、突然死を含む重篤な病態を惹起することは容易に想像される。単冠動脈に合併した冠攣縮性狭心症では、意識消失⁹⁾、心室細動¹¹⁾を伴った症例も報告されており、突然死との関連が示唆されている。これらのうち、実際に冠攣縮誘発試験を施行し冠攣縮を証明しているものは少ない。Maejima ら⁸⁾は右冠動脈洞から起始する単冠動脈症において、右冠動脈が分岐した後の左主幹部に選択的にカテーテルを挿入してアセチルコリンを投与し、同部位の完全閉塞を確認している。また Yamamoto ら⁹⁾は本症例と同タイプの単冠動脈症に対し、エルゴノピンの静脈投与で右冠動脈近位部の攣縮を確認している。一方合併症の危険性を考慮してあえて施行していない症例もある¹⁰⁾。

単冠動脈症に対する冠攣縮誘発試験における合

併症の報告は認められないが、施行の可否は議論のあるところであろう。症状、心電図変化などから冠攣縮が明らかである場合は誘発は不要と思われるが、非定型的胸痛で、心電図変化のとらえられない患者に対して確定診断を得ずに、漫然と硝酸薬、カルシウム拮抗薬を長期投与することも問題である。本症例では胸痛時にショックや重症不整脈を疑わせる意識障害は出現していないことから、通常どおりペースメーカーを留置し除細動器を準備の上、誘発試験を施行し冠攣縮性狭心症と診断し得たが、各々の症例について冠動脈の走行や支配領域などからも十分に危険性を検討したうえで行うべきであろう。前述したように、選択的にカテーテルを挿入して薬物を投与するの1つの方法と思われる。

治療に関しては通常の冠攣縮性狭心症と同様、内服治療が中心となるが、過去の報告では硝酸薬、カルシウム拮抗薬で症状の安定を得られているものが多く、本症例も同薬物にて安定を得られた。一方 Phaneuf ら¹¹⁾ は心室細動を合併した単冠動脈症の冠攣縮性狭心症で、症状の安定化に難渋し複数のカルシウム拮抗薬と内服および外用の硝酸薬を要した症例を報告している。本症例では主幹部には攣縮の傾向は認められなかったが、多枝に攣縮が誘発されていることもあり、症状が安定していても慎重な経過観察が必要であろう。また冠攣縮は運動負荷にて誘発されることもあるので定期的に負荷心筋シンチなどで虚血性変化の出現しないことを確認すべきと思われる。内服治療にても症状の安定化が得られない場合は突然死の危険性も考慮し、冠動脈バイパス手術や植え込み型除細動器も検討されるべきと思われる。

文 献

1) Sharbaugh AH, White RS. Single coronary artery. Analysis of the anatomic variation, clinical importance, and report of five cases.

JAMA 1974; 230: 243-6.

- 2) Taylor AJ, Rogan KM, Virmani R. Sudden cardiac death associated with isolated congenital coronary artery anomalies. *J Am Coll Cardiol* 1992; 20: 640-7.
- 3) Yamanaka O, Hobbs RE. Coronary artery anomalies in 126,595 patients undergoing coronary arteriography. *Cathet Cardiovasc Diagn* 1990; 21: 28-40.
- 4) Desmet W, Vanhaecke J, Vrolix M, Van de Werf F, Piessens J, Willems J, et al. Isolated single coronary artery: a review of 50,000 coronary angiographies. *Eur Heart J* 1992; 13: 1637-40.
- 5) Lipton MJ, Barry WH, Obrez I, Silverman LF, Wexler L. Isolated single coronary artery: diagnosis, angiographic classification, and clinical significance. *Radiology* 1979; 130: 39-47.
- 6) Kuon E, Ropers D. Single coronary artery: a rarity in the catheterization laboratory: case report and current review. *Can J Cardiol* 2004; 20: 647-51.
- 7) Brito FS Jr, Vianna CB, Caixeta AM, Rati Miugel AN, Perin MA, Ramires Jose AF, et al. Single coronary artery: two cases with distinct and previously undescribed angiographic patterns. *J Invas Cardiol* 1999; 11: 430-4.
- 8) Maejima Y, Yasu T, Fujiwara N, Ishida T, Kobayashi Y, Kuroki M, et al. Vasospastic total occlusion at the left main tract in a single coronary artery. *Jpn Circ J* 2001; 65: 1091-2.
- 9) Yamamoto K, Koizumi Y, Tajimi T, Inou T, Mitsutake A, Orita Y, et al. Coronary arterial spasm in single coronary artery. *Circulation* 1981; 64: 1287-90.
- 10) Koh KK. Variant angina in single coronary artery. *Am Heart J* 1991; 122: 1762-3.
- 11) Phaneuf DC, Waters DD, Dauwe F, Theroux P, Pelletier G, Mizgala HF. Refractory variant angina controlled with combined drug therapy in a patient with a single coronary artery. *Cathet Cardiovasc Diagn* 1980; 6: 413-21.