شذوذ منشأ الشرايين الإكليلية مع المسير الخاطئ بين الشريانين الكبيرين: تقرير حالتين مرضيتين نادرتين

محمد بشار عزت* **حازم الجاسم***

ندى صباغ*

الملخّص

شذوذ منشأ أحد الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ، مع مسير الشريان الإكليلي أو دونه بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي، هو تشوّه نادر الحدوث وشديد الخطورة لأنّه يؤهب إلى حدوث نوبات قاتلة من نقص التروية القلبية بعد التعرّض للجهد الشديد. عرضنا في هذا البحث حالتين من شذوذ منشأ الشرايين الإكليلية مع انضغاط الشريان الشاذ بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي. خضعت كلتا الحالتين للإصلاح الجراحي الناجح بتقنيّة رفع الغطاء عن الشريان الإكليلي الشاذ وتشكيل فوهة جديدة في الجيب الأبهري الصحيح. تجب المحافظة على درجة مرتفعة من الشك بوجود هذا التشوّه عند الأطفال والشباب الذين يشكون من خناق الصدر الجهدي، ويعدّ التصحيح الجراحي للتشوّه ضرورياً في الحالات كلّها متى وضع التشخيص.

كلمات مفتاحية: جراحة القلب، الشريان الإكليلي، تشوّه، اضطراب النظم، توقف القلب، نقص التروية

* قسم جراحة القلب– كلية الطب البشري– جامعة دمشق.

Anomalous Coronary Artery Origin and Course Between the Great Arteries: Report of Two Cases

Mohammad Bashar Izzat* **Hazem Aljasem***

Nada Sabbagh*

Abstract

Anomalous coronary artery origin from the wrong aortic sinus, with or without coronary artery coursing between the aorta and the pulmonary artery, is a rare and dangerous anomaly that predisposes to potentially fatal episodes of myocardial ischemia upon exertion. We report here two cases of anomalous origin of a coronary artery with coronary compression between the aorta and the pulmonary artery. Both cases underwent successful surgical correction using the unroofing technique with creation of a new coronary orifice in the correct aortic sinus. A high level of suspicion is required to diagnose this malformation in children and young adults who present with exertional chest pain, and surgical correction is indicated in all cases once the diagnosis is established.

Key words: heart surgery, coronary artery, malformation, arrhythmia, arrest, ischemia.

* Cardiac Surgery Hospital -Damascus University, Damascus, Syria.

المقدمة:

اتّهم عدد من تشوّهات الشرايين الإكليلية بالتسبّب بالحدوث النادر للموت المفاجئ عند الأطفال والشباب، ومن أكثر هذه التشوّهات تردداً في الأدب الطبي شذوذ منشأ أحد الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ.[1] يمكن للجذع الإكليلي الأيسر الرئيسي أن ينشأ في بعض الحالات من الجيب الأبهري الأيمن، كما يمكن للشريان الإكليلي الأيمن أن ينشأ من الجيب الأبهري الأيسر مع مسير الشريان الإكليلي أو دونه بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي. تؤهب هذه التشوهّات إلى حدوث نوبات قاتلة من نقص التروية القلبية، التي تحدث عادة خلال مدة قصيرة من التعرّض للجهد الشديد أو بعده.[2] يتطلّب الوصول إلى التشخيص الصحيح في الوقت المناسب المحافظة على درجة مرتفعة من الشك، على أن ذلك قد يكون مستحيلاً، لأنّ غالبية المرضى يبقون غير عرضيين ولا يستدعون الدراسة الطبية.

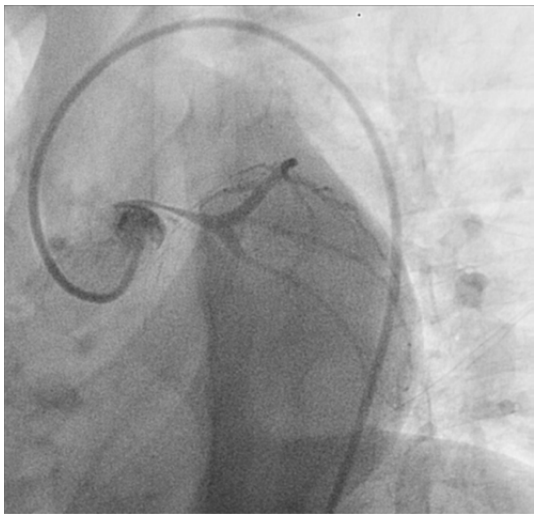
عرضنا في هذه الدراسة خبرتنا في حالتين نادرتين من شذوذ منشأ الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ، وعرضنا تقنية الإصلاح الجراحي ونتائجه.

تقرير الحالة الأولى

أصيب فتى عمره 14 سنة بنوبة من توقف القلب في أثناء اللعب في المدرسة، وأنعش من قبل المدرب حتى وصول طاقم الإسعاف الذي طبّق الصدمة الكهربائية لقلب نظم القلب من الرجفان البطيني إلى النظم الجيبي الطبيعي. نقل المريض إلى المشفى حيث قيّمت الحالة القلبية، ولم تظهر أيّة تبدلات تخطيطية أو شذوذات في تصوير القلب بالصدى، على الرغم من وجود ارتفاع طفيف في مستوى الخمائر القلبية. أظهر تصوير الشرايين الإكليلية الظليل الطبقي المحوسب في المشفى شذوذ منشأ الشريان الإكليلي الأيسر الرئيس من الجيب الأبهري الأيمن (الشكل 1).

أظهرت القثطرة القلبية كذلك انضغاط القسم القريب من الشريان الإكليلي الأيسر الرئيس بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي (الشكل 2).

الشكل (1): تصوير الشرايين الإكليلية الظليل الطبقي المحوسب، ويظهر المنشأ الشاذ للشريان الإكليلي الأيسر الرئيسي من الجيب الأبهري الأيمن مع انضغاط قسمه القريب بين الشريانين الكبيرين.



الشكل (2): القثطرة القلبية للشريان الإكليلي الأيسر الرئيسي، ويظهر الانضغاط الشديد للقسم القريب من الشريان بين الشريانين الكبيرين في أثناء الانقباض.

خضع المريض للعمل الجراحي العاجل، اذ ظهر أنّ الشريان الإكليلي الأيسر ينشأ نشوءاً شاذاً من الجيب الأبهري الأيمن بالقرب من الملتقى بين الوريقتين الأبهريتين

اليسرى واليمنى، وكانت فوهة الشريان متضيّقة بشدّة مع مسير القطعة القريبة من الشريان داخل جدار الأبهر ومن ثم بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي. كانت هناك علامات واضحة لوجود انضغاط مهم للشريان الإكليلي الأيسر في ذلك الموضع. شكّلت فوهة جديدة للشريان الإكليلي الأيسر الرئيسي في الموقع التشريحي الصحيح من الجيب الأبهري الأيسر عن طريق رفع الغطاء عن القطعة داخل جدار الأبهر، وتمّت هذه المقاربة من داخل جذر الأبهر. أنجز ذلك بسهولة بتمرير ملقط ذي زاوية قائمة من خلال الفوهة الشاذة، ومن ثم التعرّف والدخول إلى القطعة داخل الجدار بشكل طولي باستخدام شفرة رقم 11. تبع ذلك توسيع هذا الشق ليأخذ شكلاً بيضوياً بعرض 2.5 مم وطول 4 مم.

فطم المريض بنجاح عن دارة القلب والرئة الاصطناعية، وكان سير الشفاء بعد العمل الجراحي خالياً من الاختلاطات. ما يزال المريض سليماً من الأعراض كلّها بعد ستة شهور من المتابعة.

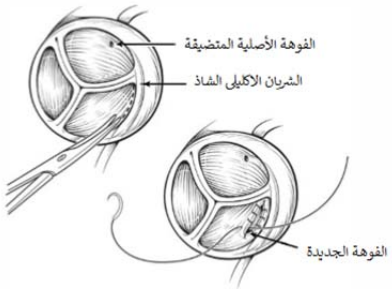
تقرير الحالة الثانية

بدأ طبيب أسنان يبلغ من العمر 31 سنة فجأة يشكو من الألم الصدري المتكرر دون ظهور أية تبدلات تخطيطية، لكن التحاليل الدموية التي أجريت خلال النوبة الأخيرة أظهرت ارتفاع مستوى التروبونين في البلاسما.

أظهر تصوير الشرايين الإكليلية الظليل الطبقي المحوسب (الشكل 3) والقثطرة القلبية شذوذ منشأ الشريان الإكليلي الأيمن من الجيب الأبهري الأيسر مع سوء قلوصية الجدار السفلي للبطين الأيسر.

خضع المريض للعمل الجراحي العاجل، اذ وجدنا أنّ الشريان الإكليلي الأيمن ينشأ نشوءاً شاذاً من الجيب الأبهري الأيسر مع مسير القطعة القريبة من الشريان بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي. فتحت الفوهة الإكليلية الشاذة طولياً بدءاً من فم الفوهة باتجاه الجيب الأبهري الأيمن، مع استئصال جزء من الجدار المشترك بين الشريان الأبهر والشريان الإكليلي الشاذ، وأعيد تقريب السطحين البطانيين باستخدام قطب متفرقة من خيط 8–0 برولين (الشكل 4).

الشكل (3): تصوير الشرايين الإكليلية الظليل الطبقي المحوسب، ويظهر المنشأ الشاذ للشريان الإكليلي الأيمن الرئيسي من الجيب الأبهري الأيسر مع تضيّق الفوهة الإكليلية الشاذة.



الشكل (4): تقنيّة رفع الغطاء عن الشريان الإكليلي الأيمن الشاذ. يُظهر الشكل الفوهة الإكليلية الأصلية المتضيّقة والمسار الشاذ للشريان الإكليلي الأيمن. يعتمد الإصلاح الجراحي على تشكيل فوهة جديدة في الجيب الصحيح.

فطم المريض بنجاح عن دارة القلب والرئة الاصطناعية دون ظهور أية علامات لنقص التروية القلبية على تخطيط القلب الكهربائي. كان سير الشفاء بعد العمل الجراحي خالياً من الاختلاطات. وبعد ثلاثة أشهر من العمل الجراحي ما يزال المريض حراً من أعراض نقص التروية القلبية كلّها التي كان يشكو منها قبل العمل الجراحي.

المناقشة:

ما تزال النسبة الدقيقة لانتشار هذا التشوّه غير معروفة، لكن دراسة متقدمة أجريت على 1950 مريضاً متتالياً

خضعوا للقثطرة القلبية، كشفت وجود المنشأ الشاذ للشريان الإكليلي الأيمن من الجيب الأبهري الأيسر في 0.92% من الحالات، بينما كانت نسبة حدوث المنشأ الشاذ للشريان الإكليلي الأيسر من الجيب الأبهري الأيمن 0.15%.[1–3] لكن من المتوقع ألا تعكس هذه النسب الانتشار الحقيقي لهذه التشوهات عند عموم الجمهرة.[4]

كانت أول إشارة إلى الأهمية السريرية لوجود شذوذ في منشأ أحد الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ قد ظهرت في عام 1974، حين أشارت دراسة تشريحية على الجثث إلى ارتباط الحدوث النادر للموت المفاجئ عند الأطفال واليافعين بوجود هذا التشوّه في بعض الحالات.[5] مع مرور السنين، بدا واضحاً أنه من الممكن للمصاب بهذا التشوّه أن يبقى سليماً من الأعراض ليتم تعرّف الاصابة مصادفة، ودعا ذلك بعض المؤلفين إلى التوصية بإجراء التداخل الجراحي فقط في حال ظهور الأعراض.[6]

بالمقابل، أشارت دراسات عدّة إلى حدوث الموت المفاجئ عند الرياضيين الشباب كالتظاهرة الأولى والوحيدة لهذا التشوّه الإكليلي،[7–8] كما أظهرت نتائج أوسع الدراسات التشريحية أنّ أقل من 30% من المرضى كانوا يشكون من أيّة أعراض سريرية مُنبئة قبل حدوث الوفاة.[2، 9]

مع أنّ الآلية المسؤولة عن حدوث نقص التروية القلبية في هذا التشوّه ما تزال غير واضحة تماماً، إلاّ أنّه من المتوقع أن ينجم ذلك عن تضيّق الفوهة الإكليلية الشاذة أو الزاوية الحادة التي ينطلق منها الشريان الإكليلي الشاذ.[10] من الآليات الأخرى التي قد تكون مسؤولة عن حدوث نقص التروية القلبية الحاد تمطّط القطعة داخل جدار الأبهر أو انضغاطها بالملتقى الأبهري في أثناء الانبساط، أو الانضغاط الجانبي للشريان الشاذ في منطقة المسير داخل جدار الأبهر أو بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي في أثناء الانقباض.[11] تشير الدراسات السريرية إلى أنّ الأعراض الأكثر شيوعاً للإصابة هي الألم الصدري والخفقان والغشي في أثناء التمارين الرياضية المجهدة أو مباشرة بعد الانتهاء عندما يصل نتاج القلب واستهلاك العضلة القلبية للأوكسجين إلى أقصاهما،[12] ولذلك يجب أن يؤخذ هذا التشخيص بالحسبان عند كل مريض شاب ذي أعراض مُحرَّضة بالجهد توحي بنقص التروية القلبية، وعند من ينجو من نوبات توقف القلب المفاجئ، على أنّ وضع التشخيص الصحيح يتطلّب وجود مُشعر مرتفع جداً من الشك السريري، كما ظهر في الحالتين المذكورتين هنا.

يُستطب حالياً إجراء التداخل الجراحي عند كل مريض لديه شذوذ في منشأ الشريان الإكليلي الذي يسير بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي ، والمترافق مع وجود أعراض و/أو علامات نقص التروية القلبية أو اضطرابات النظم البطينية، كما يُجمع الغالبية على ضرورة إجراء التداخل الجراحي عند المرضى غير العَرَضيين مع وجود شذوذ في منشأ الجذع الأيسر الرئيسي ومسيره نظراً الى الخطورة المرتفعة لحدوث الموت المفاجئ عند هذه المجموعة من المرضى. بالمقابل، تبقى معالجة المرضى غير العَرَضيين مع شذوذ مسار الشريان الإكليلي الأيمن محل خلاف،[13] على أنّ الدلائل المتزايدة على أن هذا التشوّه مهدّد للحياة قد حثّت كثيراً من الباحثين على التوصية بإجراء التداخل الجراحي في الحالات كلّها متى تم وضع التشخيص.[14]

لقد تفاوتت طرائق معالجة شذوذ منشأ أحد الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ، واشتملت على إعادة زرع الشريان الإكليلي في الجيب الأبهري الصحيح،[15] أو إزاحة الشريان الرئوي الرئيسي إلى الأيسر بهدف خلق مسافة إضافية بين الجذعين الشريانيين الأبهر والرئوي،[7، 16] أو زرع مجازة اكليلية باستعمال طعم من الشريان الثدي الباطن.[11] تترافق التقنيّة الأخيرة مع خطورة حدوث عودة انغلاق المجازة الشريانية المزروعة بسرعة بسبب الجريان التنافسي ضمن الشريان الإكليلي الأصلي.[17، 18] ممّا دعا بعضهم إلى التوصية بربط الشريان الإكليلي الأصلي في المنطقة التي تقع قبل موقع زرع المجازة الإكليلية.[19] تُشكّل تقنيّة رفع الغطاء unroofing حالياً العملية الجراحية المُختارة لمعالجة المرضى المصابين بشذوذ منشأ أحد الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ،[20] وهي التقنيّة التي استخدمناها في الحالتين المذكورتين أعلاه. لا توجد حتى الآن بيانات عن السلوكية طويلة الأمد للفوهات الإكليلية المُحدَثة في عمليات رفع الغطاء، لكن النتائج قصيرة الأمد والمتوسطة الأمد مطمئنة دون أية تقارير عن حدوث تضيّق في الفوهة.

الخلاصة:

إنّ شذوذ منشأ أحد الشرايين الإكليلية من الجيب الأبهري الخاطئ، مع مسير الشريان الإكليلي أو من دونه بين الشريان الأبهر والشريان الرئوي، هو تشوّه نادر الحدوث وشديد الخطورة. يجب الشك بوجود هذا التشوّه عند المرضى السليمين من الأمراض الأخرى الذين يشكون من خناق الصدر الجهدي، وبالنظر إلى خطورة الوفاة المفاجئة الناجمة عن الإصابة بنقص التروية القلبية، فإنّ التصحيح الجراحي للتشوّه يُعدّ ضرورياً بغض النظر عن وجود الأعراض أو عدمه. تُشكّل عملية رفع الغطاء عن الشريان الإكليلي الشاذ وتشكيل فوهة جديدة في الجيب الأبهري الصحيح طريقة آمنة لتصحيح هذا التشوّه والتخلّص من نقص التروية، ويتوقع أن تترافق مع النمو الطبيعي للشرايين الإكليلية عند الأطفال والوقاية من حدوث الموت المفاجئ.

المراجع References

1. Villa A.D., Sammut E., Nair A., Rajani R., Bonamini R., Chiribiri A.. Coronary artery anomalies overview: The normal and the abnormal. World J Radiol. 2016;8:537-55
2. Alphonso N., Anagnostopoulos P.V., Nolke L., *et al.* Anomalous coronary artery from the wrong sinus of Valsalva: A physiologic repair strategy. Ann Thorac Surg 2007;83:1472-1476
3. Angelini P.. Coronary artery anomalies – current clinical issues: definitions, classifications, incidence, clinical relevance, and treatment guidelines. Tex Heart Inst J 2002;29:271-8
4. Davis J.A., Cecchin F., Jones T.K., *et al.* Major coronary artery anomalies in a pediatric population: Incidence and clinical importance. J Am Coll Cardiol 2001;37:593-597
5. Cheitlin M.D., De Castro C.M., McAllister H.A.. Sudden death as a complication of anomalous left coronary origin from the anterior sinus of Valsalva. A not-so-minor congenital anomaly. Circulation 1974;50:780-7
6. Davis J.A., Cecchin F., Jone T.K., *et al.* Major coronary artery anomalies in a pediatric population: Incidence and clinical importance. Ann Thorac Surg 1994;58:828-32
7. Rodefeld M.D., Casey B., Culbertson C.B., *et al.* Pulmonary artery translocation: A surgical option for complex anomalous coronary artery anatomy. Ann Thorac Surg 2001;72:2150-2152
8. Karamichalis J.M., Vricella L.A., Murphy .DJ., *et al.* Simplified technique for correction of an anomalous origin of left coronary artery from the anterior aortic sinus. Ann Thorac Surg 2003;76.
9. Basso C., Corrado D., Thiene G.. Congenital coronary artery anomalies as an important cause of sudden death in the young. Cardiol Rev 2001;9:312-7
10. Taylor A.I., Rogan K.V., Virmani R.. Sudden cardiac death associated with isolated congenital coronary artery anomalies. J Am Coli Cardiol 1992;20:640-7
11. Liberthon R.R. .Case records of the Massachusetts General Hospital. N Engl J Med 1989;320:1475-83
12. Romp R.L., Herlong R., Landolfo C.K., *et al.* Outcome of unroofing procedure for repair of anomalous aortic origin of left or right coronary artery. Ann Thorac Surg 2003;76:589-596.
13. Fernandez E.D., Kadivar H., Hallman G.L., *et a*l. Congenital malformations of the coronary arteries: the Texas Heart Institute experience. Ann Thorac Surg 1992;54:732-40
14. Mustafa I., Gula G., Radley-Smith R., *et al.* Anomalous origin of the left coronary artery from the anterior aortic sinus: a potential cause of sudden death. J Thorac Cardiovasc Surg 1981;82:297-300
15. Di Lello F., Mnuk J.F., Flemma R.I., *et al.* Successful coronary reimplantation for anomalous origin of the right coronary artery from the left sinus of Valsalva. J Thorac Cardiovasc Surg 1991;102:455-6
16. Gulati R., Reddy V.M., Culbertson C., *et al.* Surgical management of coronary artery arising from the wrong coronary sinus, using standard and novel approaches. J Thorac Cardiovasc Surg 2007;134. Tector A.J., Schmahl T.M., Janson B., *et al.* The internal mammary artery graft: its longevity after coronary bypass. JAMA 1981;246:2181-3
17. Rinaldi R.G., Carballido J., Giles R., *et al.* Right coronary artery with anomalous origin and slit ostium. Ann Thorac Surg 1994;58:828-832
18. Shah A.S., Milano C.A., Lucke J.P.. Anomalous origin of the right coronary artery from the left coronary sinus: case report and review of surgical treatments. Cardiovasc Surg 2000;8:284–6
19. Erez E., Tam V.K.H, Doublin N.A, *et a*l. Anomalous coronary artery with aortic origin and course between the great arteries: Improved diagnosis, anatomic findings, and surgical treatment. Ann Thorac Surg 2006;82:973-977.

تاريخ ورود البحث 2017/11/20.
تاريخ قبوله للنشر 2018/02/22.