



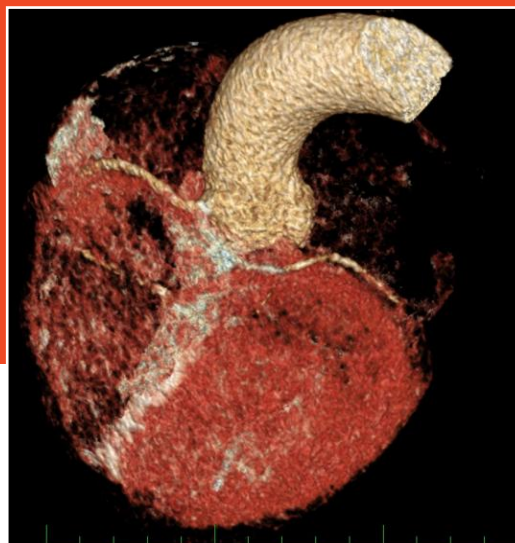
Cor et Vasa

CASE REPORTS

Mozkový absces u atrezie plicnice
s defektem komorového septa

Pravokomorová stimulační elektroda
komplikuující radiofrekvenční ablací
kavotrikuspidálního isthmusu

Anomální odstup kmene levé koronární
tepny z protilehlého sinu s průběhem
mezi velkými cévami



CT rekonstrukce proximálního
úseku koronárních arterií s patrným
extramurálním průběhem.
(Doškál P. Anomální odstup kmene levé
koronární tepny z protilehlého sinu
s průběhem mezi velkými cévami)



Vydavatel

Česká kardiologická společnost, z. s.
Netroufalky 6b, 625 00 Brno

Předseda:

prof. MUDr. Miloš Táborský, CSc.,
FESC, FACC, MBA

Vedoucí redaktori

doc. MUDr. Petr Kala, Ph.D., FESC, FSCAI
doc. MUDr. Petr Ošťádal, Ph.D., FESC

Zodpovědná redaktorka

Mgr. Klára Procházková

Grafická úprava a sazba

Studio Franklin

Programování a správa

PRO-WEB.cz

Žádná část tohoto časopisu nesmí
být kopírována ani rozmnožována
za účelem dalšího rozšiřování
v jakékoli formě či jakýmkoli
způsobem bez písemného souhlasu
vlastníka autorských práv.

ISSN 2571-0648

Vychází 6 čísel ročně
Copyright: © 2018, ČKS.

Mozkový absces u atrezie plicnice s defektem komorového septa

E. Hlavinová, T. Zatočil, A. Nečasová, T. Brychta,
Š. Bohatá, V. Vybíhal, A. Mitášová, M. Hanslianová 24

Pravokomorová stimulační elektroda komplikující radiofrekvenční ablací kavotrikuspidálního isthmusu

M. Hozman, P. Peichl, A. Schee 30

Anomální odstup kmene levé koronární tepny z protilehlého sinu s průběhem mezi velkými cévami

P. Doškář, M. Mates, P. Neužil, P. Ošťádal 34

Mozkový absces u atrezie plicnice s defektem komorového septa

Eva Hlavinová^a, Tomáš Zatočil^a, Anna Nečasová^a, Tomáš Brychta^a,
Šárka Bohatá^b, Václav Vybíhal^c, Adéla Mitášová^d, Markéta Hanslianová^e

^a Ambulance vrozených srdečních vad v dospělosti, Interní kardiologická klinika, Fakultní nemocnice Brno, Brno, Česká republika

^b Radiodiagnostická klinika, Fakultní nemocnice Brno, Brno, Česká republika

^c Neurochirurgická klinika, Fakultní nemocnice Brno, Brno, Česká republika

^d Neurologická klinika, Fakultní nemocnice Brno, Brno, Česká republika

^e Oddělení klinické mikrobiologie, Fakultní nemocnice Brno, Brno, Česká republika

SOUHRN

Klíčová slova:

Atrezie plicnice
Cyanotická srdeční vada
Defekt komorového septa
Mozkový absces

Mozkový absces se u zdravé populace vyskytuje velmi vzácně a mortalita na mozkový absces je v současné době nízká. Pacienti s cyanotickou srdeční vadou představují zvláštní skupinu nemocných, u kterých se v důsledku oběhových změn i větší vulnerability mozku s mozkovým abscesem můžeme setkat podstatně častěji. Představuje závažnou komplikaci s vysokou mortalitou, zejména při pozdním stanovení diagnózy. Jednotná doporučení pro vedení léčby neexistují. V kasuistice popisujeme případ 28letého muže sledovaného pro pulmonální atrezii s defektem komorového septa s otevřenou tepennou dučejí a velkými aortopulmonálními kolaterálami, s těžkou plicní hypertenzí a cyanózou. U pacienta je i přes poměrně chudou neurologickou symptomatologii a chybějící známky infekce v laboratorním obraze vstupně provedena výpočetní tomografie (CT) mozku, při níž je vysloveno podezření na přítomnost mozkového abscesu. Časná diagnostika současně s razantní antibiotickou terapií, v našem případě doplněnou o miniinvazivní neurochirurgickou intervenci (punkci abscesu), se ukazuje jako zásadní faktor ovlivňující prognózu pacientů s mozkovým abscesem. Cyanotické vady s plicní hypertenzí, ale i bez plicní hypertenze provází velká morbidita a jednou z mnoha život ohrožujících komplikací přesahujících kardiologii je i mozkový absces.

© 2018, ČKS.

ABSTRACT

Keywords:

Cerebral abscess
Cyanotic heart defect
Pulmonary atresia
Ventricular septal defect

The incidence of cerebral abscess (CA) at normal population is very rare, the general mortality of CA in present conditions is very low. On the contrary, the patients with cyanotic heart defect, due to the altered systemic circulation and higher cerebral vulnerability, present a special group of patients with a lot higher CA incidence. CA is considered a severe complication with high mortality at these patients, especially when initially misdiagnosed. There are no general recommendations for therapy management of CA. In this case report, a 28-year-old patient with pulmonary atresia with ventricular septal defect, arterial duct and significant aortopulmonary collaterals, accompanied with severe pulmonary hypertension and cyanosis, is presented. CA is diagnosed by initial cranial CT scan, proceeded though there is a lack of specific neurological signs and absence of elevated inflammatory markers at the patient. Early diagnostics and intense antibiomatic therapy, accompanied by miniinvasive neurosurgical intervention – by the puncture aspiration of CA at this patient, is a vital factor improving prognosis of patients with CA. The cyanotic heart defects, with or without pulmonary hypertension, are associated with high morbidity. One out of many life threatening diagnoses at these patients, furthermore beyond standard cardiological diagnostics, presents CA.

Úvod

Atrezie plicnice s defektem komorového septa (PA-VSD)

Atrezie plicnice (PA) s defektem komorového septa (VSD) je závažná vzácná vrozená srdeční vada (VSV). Prevalence této vady v naší populaci je udávána jako 0,07/1 000 živě narozených dětí, vyskytuje se u 1,09 % pacientů s VSV.¹ Plicnice je neprůchodná a plicní řečiště je zásobené přes otevřenou tepennou dučej (PDA) nebo aortopulmonálními kolaterálami (MAPCA). Plicní řečiště může být přitom hypoplastické či normální. Různě vydatné MAPCA mají velký sklon ke stenózám. Vada je i dnes obtížně radikálně řešitelná. Pokud je radikální korekce možná, provádí se série operačních zákroků, tzv. fázová korekce (I. udržení plicního průtoku, II. zajištění jediného zdroje plicní cirkulace, tzv. unifokalizace, tj. uvolnění kolaterál od aorty, napojení na plicnici, eventuálně s rekonstrukcí plicnice a poté III. definitivní korekce s pulmonálním homograftem a uzávěrem VSD a zrušením spojek).² Po celou dobu zákroku u pacienta bojujeme s plicní hypoperfuzí na jedné straně nebo s plicní hypertenzí na straně druhé.

Bez operační korekce vady je dlouhodobé přežití pacientů špatné, 50 % pacientů přežívá jeden rok, 8 % deset let, přežití do dospělosti je spíše vzácné. Marelli a spol. uvádějí, že délka dožití bez operace nepřekračuje třetí dekádu. Nejdelší dokumentovaná doba přežití u pacienta bez korekce vady byla 59 let.³ Délka přežití je závislá na kvalitě plicního průtoku. Jsou-li MAPCA a PDA dostatečně velké, může tímto velkým levoprávním zkratem dojít k závažné plicní hypertenzi. Děti po narození mají kvůli velkému levoprávnému zkratu srdeční selhání, respirační infekty a vysokou mortalitu, ale jen lehkou cyanózu (dostatečnou oxygenaci zajišťuje právě velký plicní průtok). Postupně dochází k rozvoji plicních vaskulárních změn s vzestupem plicní vaskulární rezistence. Jakmile dojde k vyrovnání tlaků mezi zkratovanými místy, levoprávný zkrat se sníží a poklesne plicní průtok. Zhorší se cyanóza (složka pravolevého zkratu), ale zároveň se pacientům částečně uleví (sníží se srdeční selhání v důsledku poklesu do té doby zvýšeného plicního průtoku). Protože v tomto případě odstupuje ze srdce jen jedna výtoková céva (aorta) a i hemodynamika vady je obdobná, Collett a Edwards tuto vadu řadili v dřívější klasifikaci mezi společné arteriální trunky (4. typ).⁴

Pokud je plicní průtok snížený od narození (málo vydatné PDA, MAPCA), dramatický klinický obraz a těžká cyanóza jsou přítomny již od narození. Na druhé straně je však plicní řečiště chráněno před velmi negativními vlivy plicní hypertenze.

Vadu bez operace, ať už s nízkým, nebo s vysokým plicním průtokem, provází v pozdějších fázích života různý stupeň cyanózy. Hypoxemie vede ke stimulaci krve tvorby, a tím k sekundární erytrocytóze, později dochází k sideropenii a tvorbě mikrocytů (jejich tvorba je taktéž akcelerována opakovanými neopodstatněnými venepunkcemi). Mikrocyty mají zhoršenou schopnost deformace a průchodu kapilárním řečištěm. Tkáňová hypoxie predisponuje ke vzniku infekčních ložisek, jako jsou bronchopneumonie, infekční endokarditida, mozkové abscesy (MA).⁵ Časté jsou i ischemické mozkové příhody (iCMP). Četné mikrotromby snadno proniknou do mozkové cirkulace (paradoxní embolizace), zvláště snadno vznikají v síních při

častých supraventrikulárních tachykardiích. Kromě obvyklých rizikových faktorů zde riziko iCMP zvyšuje mikrocytóza a venepunkce.⁶

Mozkový absces a cyanotické srdeční vady

Mozkový absces je ohraničeným zánětlivým procesem přímo uvnitř mozkového parenchymu. Tato diagnóza je velmi vzácná, incidence je udávána 0,3/100 000 osob, v rozvojových zemích přibližně dvojnásobná.⁷ První zdokumentovanou úspěšnou operaci mozkového abscesu provedl v Osmanské říši v roce 1891 dr. Cemil Topuzlu.⁸

Zánět může vzniknout buď jako infekce *in situ* při penetrujícím kranio-cerebrálním poranění či poúrazové likvorie, nebo se může šířit *per continuitatem* při otitidě či sinusitidě.⁹ Další možnou cestou šíření infekce je cesta hematogenní ze vzdáleného zánětlivého ložiska (chronická bronchitida, bronchiektazie a plicní absces, infekční endokarditida, HIV infekce, imunodeficit či abúzus drog). Tento mechanismus je však velmi vzácný s ohledem na fyziologii mozkového oběhu s velmi dobře fungující hematoencefalickou bariérou.⁹ Výjimku tvoří právě cyanotické srdeční vady, u nichž je MA relativně častý (5–18,7 %).¹⁰

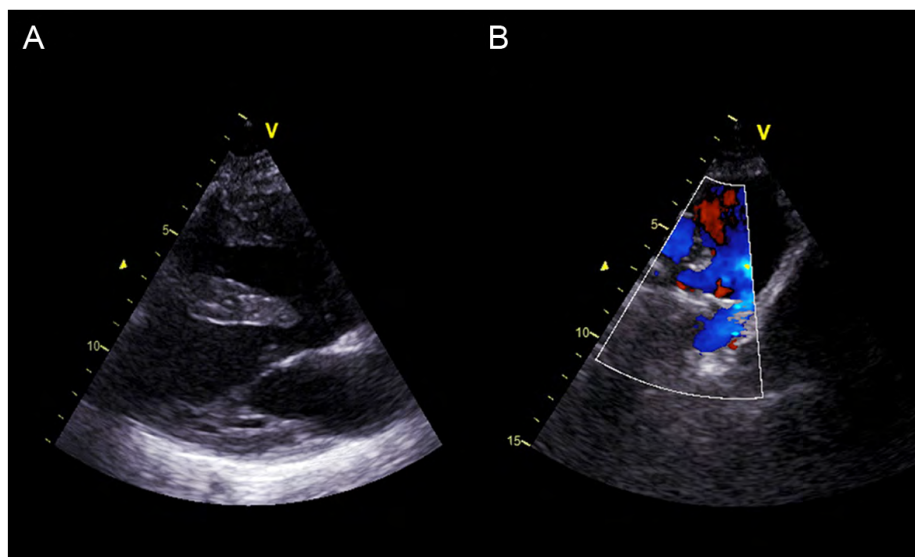
U pacientů s cyanotickou srdeční vadou nedochází v důsledku pravolevého zkratu k filtrování infekčního agens plicní cirkulací, ve které jsou bakterie za normálních podmínek vzhledem k velké fagocytární kapacitě plic zachyceny, a tudíž se snadno dostávají až do mozku. V důsledku závažné hypoxie a metabolické acidózy dochází navíc v mozku ke vzniku oblastí s nízkou minutovou perfuzí, které spolu se zvýšenou viskozitou krve při kompenzatorní polycytemii představují predisponující podmínky pro vznik infekce locus minoris. Stejně tak zhoršení metabolismu všech tkání vede k vyššímu riziku vzniku infekce v organismu, která se pak výše uvedenými mechanismy šíří do mozkové tkáně.

Soubor

V naší ambulanci pro VSV v dospělosti dispenzarizujeme celkem 1 478 dospělých pacientů s VSV, dalších 30 pacientů již zemřelo. Pětačtyřicet (3 %) z nich je cyanotických (Eisenmengerův syndrom nebo vady s nízkým plicním průtokem). Osmnáct z nich již zemřelo, což odpovídá skutečnosti, že se jedná o nejrizikovější skupinu nemocných. U 7 z 45 (15,6 %) se vyskytly závažné neurologické komplikace: cévní mozková příhoda (dle údajů, které máme k dispozici vždy ischemické etiologie) u tří (6,7 %), MA u čtyř (8,9 %), přičemž v jednom z případů byla diagnóza stanovena až na základě pitevního nálezu.

Kasuistika

Prezentujeme případ 28letého muže dlouhodobě sledovaného pro PA-VSD s PDA a MAPCA (obr. 1, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72&pid=1045&file=506>) bez operace. Má těžkou plicní hypertenzi, cyanózu s adaptivní erytrocytózou s hyperviskózním syndromem, řešeným opakovanými venepunkcemi (naposledy před měsícem). V předchorobí má stav po prodělané meningitidě před čtyřmi lety, dále je

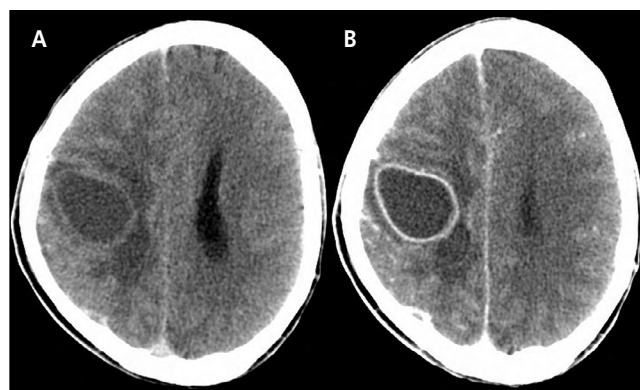


Obr. 1 – Transthorakální echokardiografie. V parasternální dlouhé ose (A) je patrný nerestriktivní VSD a jediná výtoková céva nasedající nad VSD – aorta, v suprasternální projekci (B) je patrné PDA a MAPCA (B). MAPCA – aortopulmonální kolaterály; PDA – otevřená tepenná duře; VSD – defekt komorového septa.

sledován na neurologii pro skoliózu hrudní páteře s probíhající rehabilitační léčbou.

Nyní přichází pro poměrně nenápadnou symptomatologii trvající čtyři dny (křeče levé poloviny hrudníku, levého malíčku, tváře, nutkání k mrkání, bolesti hlavy), kterou neurolog hodnotí jako recidivující parciální simplexní motorické paroxysmy jacksonského typu vlevo. V objektivním nálezu je přítomna lehká levostranná hemiparéza, pacient je afebrilní a kardiálně kompenzovaný, pulsním oxymetrem měříme saturaci 78 %.

V laboratoři dominuje hodnota hemoglobinu 202 g/l, hematokrit 0,62 l/l, střední objem erytrocytu 80,5 fl, leukocyty $11,9 \times 10^9/l$, C-reaktivní protein 5,1 mg/l, ostatní parametry jsou v normě. Dále je provedeno duplexní ultrazvukové vyšetření magistralních mozkových tepen s negativním nálezem a následně akutní nativní CT mozku s nálezem nehomogenního hypodenzního prostorné-



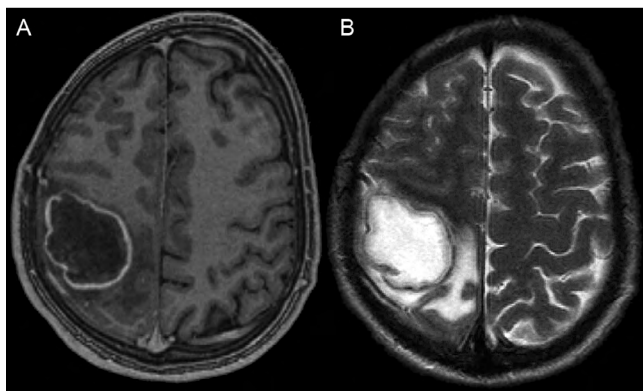
Obr. 3 – Nativní CT mozku a CT mozku s použitím kontrastní látky. Na nativním CT (A) lze spatřit oválnou formaci, jejíž denzní stěna se postkontrastně výrazně sytí (B). V okolí je patrný perifokální edém utlačující pravou postranní komoru.



Obr. 2 – Nativní CT mozku v transverzální rovině. Vysoko fronto-parietálně vpravo je patrná kulovitá expanze lemovaná hyperdenzním lemem (představujícím pyogenní membránu), v okolí perifokální edém.

ho ložiska 30×35 mm s denzní stěnou vysoko fronto-parietálně vpravo s perifokálním edémem bez přesunu středočárových struktur (obr. 2, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72&pid=1045&file=505>). Diferenciálně diagnosticky je neurologicky zvažován mozkový absces či tumorózní ložisko.

Vzhledem k nejasnosti diagnózy na počátku a dobrému klinickému stavu pacienta je mikrobiology upuštěno od obvykle doporučené antibiotické terapie (ATB) cefotaximem a metronidazolem¹¹ a volíme jinou kombinovanou empirickou terapii (ampicilin 12 g/den, metronidazol 1,5 g/den) vzhledem k mozkovému edému posílenou také o kortikosteroidy (dexamethason 4 mg à 8 h i.v.). Za hospitalizace se u pacienta objevují třikrát parciální motorické jacksonské epiparoxysmy, terapii tedy posilujeme o antiepileptikum (carbamazepim 2×200 mg p.o.). Veškerá kulturační vyšetření jsou negativní, i zánětlivé parametry zůstávají nadále nízké a pacient je bez teplot, proto pokračujeme v již nasazené ATB terapii. Osmý den od vzniku obtíží doplňujeme magnetickou rezonanci (MR)

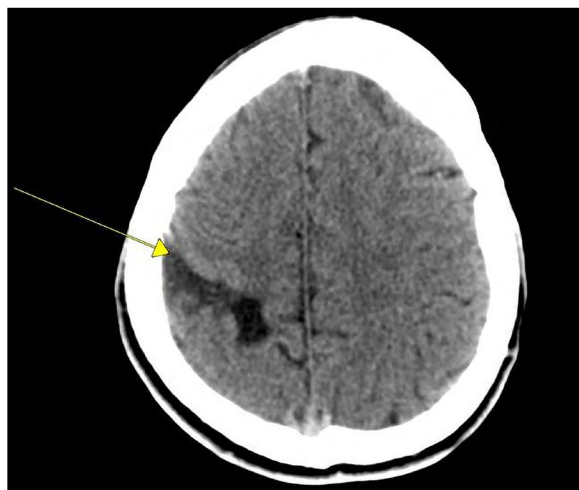


Obr. 4 – MR mozku. Dutina vyplněná signálem tekutiny se sytící se silnou stěnou a perifokálním edémem v okolí, odpovídající diagnostikovanému abscesu.

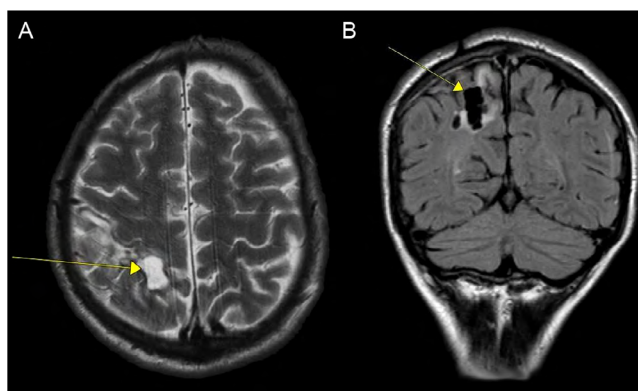
mozku, kde je potvrzena prstenčitě se sytící léze (obr. 3, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72&pid=1045&file=507>). Diferenciálně diagnosticky nadále zvažujeme MA, ale i tumor. Vedlejším nálezem je aneurysma v oblasti arteria communicans anterior. Vzhledem k diagnostickým rozpakům a stacionární velikosti ložiska i přes intenzivní antibiotickou terapii je 12. a 13. den od vzniku obtíží indikována punkce ložiska, při které je celkem evakuováno 20 ml purulentní tekutiny. Materiál odesíláme na kultivační i histologické vyšetření. Po domluvě s ATB střediskem od 18. dne upravujeme ATB terapii – původně je navržen chloramfenikol i.v., ten ale není v té době dostupný na trhu, proto volíme kombinaci rifampicinu (900 mg/den p.o.) s linkomycinem (1 800 mg à 6 h i.v.). Devatenáctý den je provedeno CT mozku s použitím kontrastní látky (obr. 4, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72&pid=1045&file=508>), kde je již patrná regrese ložiska a postkontrastně zjevná typická prstenčitá formace s typickým sytým lemem pyogenní membrány, tedy rentgenologicky nález odpovídající MA. Mikrobiologické vyšetření punktátu je v běžné době kultivace bez nálezu agens, pokračujeme tedy v zavedené antibiotické terapii. Po prodloužené kultivaci punktátu jsou zachyceny *Staphylococcus* koaguláza negativní a *Streptococcus* alfa-hemolyticus a grampozitivní anaerobní tyčinky. Vzhledem k dobré citlivosti na podávaná ATB léčbu ponecháváme a 26. den pacienta propouštíme do domácí péče. Při propuštění je bez subjektivních obtíží, kardiálně zůstává nadále kompenzován, přetrvává frustní levostranná hemiparéza. V medikaci ponecháváme rifampicin (900 mg/den p.o.) v kombinaci s lincomycinem (4 g/den p.o.) dlouhodobě.

Pětatřicátý den přichází pacient na plánované kontrolní CT mozku, kde je i přes stacionární klinický stav patrná progresse nálezu. Pacienta proto znovu hospitalizujeme a 37. den je u něj provedena opět v lokální anestezii doplněné analgosedací punkce s aspirací 25 ml hnisu a taktéž je zavedena drenáž, která je použita k lokálnímu doléčení. Zobrazovacími metodami následně ověřujeme výraznou regresí nálezu. Kultivace jsou tentokrát i po prodloužené době bez záchytu mikrobů. Pacient je propuštěn 43. den s dlouhodobou antibiotickou terapií (rifampicin 900 mg/den a lincomycin 2 g/den p.o.).

Pacient zůstává v následujících dvou letech bez větších neurologických obtíží, pouze s občasnými bolestmi hlavy,



Obr. 5 – Nativní kontrolní CT mozku. Na nativním CT mozku v transverzální rovině je patrná pruhovitá hypodenzita v místě původního abscesu, představující pooperační pseudocystu a gliovou jizvu.



Obr. 6 – Kontrolní MR mozku. Na T2 váženém obraze v transverzální rovině je patrná léze blízká se signálu likvoru představující pooperační pseudocystu, v okolí pruhovité T2 hyperintenzity v rámci gliózy (A). V obraze FLAIR v koronární rovině (= T2 vážený obraz s potlačením signálu likvoru) lze sledovat pooperační pseudocystu (tmavá léze) lemovanou hyperintenzitami (světlé pruhy) v rámci gliové jizvy (B).

bez závažnějšího neurologického deficitu a s verifikovanou sanací abscesu na CT i MR kontrolách (obr. 5, 6; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72&pid=1045&file=510>; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72&pid=1045&file=509>).

Diskuse

Prevalence MA u cyanotických VSV v našem souboru (8,9 %) odpovídá literárním zkušenostem (5–18,7 %),¹⁰ přičemž nejčastěji vzniká u pacientů s nekorigovanou transpozicí velkých tepen a u pacientů s Fallotovou tetralogií. U dětí do dvou let věku se vyskytuje velmi vzácně.

MA u cyanotických VSV jsou často hlouběji uložené a lokalizované na rozhraní šedé a bílé hmoty mozkové. Pouzdro MA je většinou tenčí na komorové straně ve

srovnání s lokalizací v mozkové kůře. Růst abscesu pak může vést k intraventrikulární ruptuře, která je prognosticky nepříznivým faktorem. K ruptuře také častěji dochází u MA lokalizovaných v parietální či okcipitální oblasti. Negativními prognostickými faktory jsou dále těžší neurologické postižení, vyšší věk pacientů a hlubší stupeň hypoxie.¹² Na druhé straně počet a velikost MA, typ infekčního agens, typ a délka antibiotické terapie, použití kortikosteroidů, hodnota hematokritu a typ VSV s prognózou nekoreluje.¹² V našem souboru cyanotických VSV s MA byla průměrná hodnota saturace kyslíku měřená pulsním oxymetrem 75,8 %, průměrná hodnota hemoglobinu 205,5 g/l. Pacient, u kterého byla diagnóza MA stanovena *post mortem*, měl velmi nízkou saturaci (70 %). Pacient z naší kasuistiky měl sice MA lokalizován v prognosticky nepříznivé oblasti, neměl však těžké neurologické postižení a byl po celou dobu kardiálně dobře kompenzován.

Mortalitu pacientů s MA zásadně ovlivnilo zavedení moderních zobrazovacích metod (CT a především MR) umožňujících časnou detekci abscesových ložisek, která je možno v indikovaných případech ošetřit chirurgicky. Jednou z metod je použitá miniinvasivní punkční metoda s možností zavedení drenáže a důkladného lokálního ošetření. Abscesové ložisko lze přesně zaměřit pomocí neuronavigace nebo stereotakticky, popřípadě provést punkci pod ultrazvukovou kontrolou, což je výhodné zejména u hlouběji lokalizovaných abscesů. Další metodou je pak resekce abscesu otevřenou cestou z kraniotomie.

V kombinaci s moderní antibiotickou léčbou a s možnostmi chirurgické léčby klesla mortalita pacientů s MA z 40–60 % v pre-CT éře, na 4–17 %.¹³ U pacientů s cyanotickými srdečními vadami však zůstává vysoká (13,3–18 %).¹⁴ U pacientů s MA s cyanotickou VSV neexistují jednotná doporučení pro vedení léčby. Hemodynamická nestabilita a široké spektrum koagulačních poruch u těchto pacientů představuje vyšší riziko anestezie a operace. V případě, že je chirurgická léčba nezbytná, je u této skupiny nemocných vhodné preferovat miniinvasivní metody.¹² U všech pacientů s diagnostikovým cyanotickým mozkovým abscesem je třeba co nejdříve zahájit antibiotickou terapii ke snížení rizika intraventrikulární ruptury abscesu. Rozhodnutí o způsobu léčby závisí na velikosti abscesového ložiska a klinických příznacích pacienta.

V případě, že je ložisko menší než 2 cm¹² a pacient je klinicky stabilní, je možné zahájit konzervativní léčbu spočívající v intravenózní aplikaci ATB se širokým spektrem účinku, nejčastěji ze skupiny beta-laktamových antibiotik s odběrem hemokultur před zahájením terapie. Pokud po týdenním podávání ATB nedochází ke klinickému zlepšení či regresi ložiska, je nutné zvážit operační řešení. V našem případě bylo sice ložisko větší než 2 cm, nicméně pacient byl klinicky stabilní, proto byl zvolen primárně konzervativní postup.

MA větší než 2 cm v průběhu, jenž způsobuje signifikantní klinické potíže, je vhodné řešit již iniciálně operativně, většinou za použití aspirační techniky. Tento způsob léčby se zdá úspěšný i bezpečný taktéž u dětských pacientů s VSV.¹⁵ Při aspiraci dochází ve většině případů k redukci objemu abscesového ložiska o 50–80 %. Pokud po dvou týdnech antibiotické terapie nedochází k regresi

velikosti abscesu pod 1 cm, je na zvážení aspiraci opakovat. Obvykle jsou v léčbě dostatečné dvě až tři aspirace,¹² stejně tomu bylo i u pacienta z naší kasuistiky (celkem dvě aspirace).

Při ruptuře MA je první linií léčby farmakoterapie za pečlivého hodnocení efektu terapie pomocí CT nebo lépe pomocí MR. Z chirurgického hlediska je vhodné zvážit zavedení zevní komorové drenáže sloužící k derivaci infikovaného mozkomíšního moku a možností intratekální aplikace antibiotik (například gentamycinem), vždy v kombinaci s intravenózně podávanými ATB. U všech pacientů je doporučována po zvládnutí infekce antibiotická profylaxe po dobu minimálně šesti týdnů, u imunokompromitovaných pacientů minimálně 12 týdnů.¹²

Prezentovaná kasuistika ukazuje i to, že přes velký rozsah MA byl klinický obraz velmi nevýrazný, a laboratorní obraz dokonce zcela a opakovaně negativní, což u opouzdřeného zánětu může být! Zásadním se tak ukazuje na tuto možnou komplikaci pomýšlet a provést CT nebo lépe MR mozku. Vyplývá z ní také význam multioborové spolupráce kardiologů, neurologů, neurochirurgů, radiologů a mikrobiologů, která je v úspěšné péči o pacienta s komplexní VSV a MA naprosto zásadní.

Závěr

Jinak velmi vzácný MA je u cyanotických VSV relativně častou a velmi závažnou komplikací. Příznaky mohou být plíživé, bez elevace zánětlivých markerů a bez pozitivních kultivačních nálezů. Důležitá je včasná diagnóza, která se opírá o včas provedené kvalitní zobrazení mozku a promptní zahájení léčby zahrnující kromě širokospektré ATB terapie i případné chirurgické ošetření s preferencí miniinvasivních technik. Rizikovými faktory ischemických iktů jsou kromě hypertenze a fibrilace síní i mikrocytóza a venepunkce v anamnéze. Naopak zvýšený hematokrit nebyl jako rizikový faktor prokázán. Dříve hojně prováděné venepunkce nejen zvyšují riziko iCMP (mikrocyty a vzduchové nebo tromboembolie do mozku), ale i zhoršují odolnost mozku vůči infekcím (mikrocyty) a představují i potenciální vstup pro infekci.

Měla by se tedy provádět jen v přísně indikovaných případech s vědomím těchto rizik.

Prohlášení autorů o možném střetu zájmů

Žádný z autorů nemá konflikt zájmů.

Financování

Žádné.

Prohlášení autorů o etických aspektech publikace

Zpracování článku bylo provedeno v souladu s etickými standardy.

Informovaný souhlas

Požadavky týkající se informovaného souhlasu se nevztahují na tento článek.

Odkaz na článek online

<http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=72>

Literatura

1. M. Samánek, M. Vorísková, Congenital heart disease among 815,569 children born between 1980 and 1990 and their 15-year survival: a prospective Bohemia survival study, *Pediatric Cardiology* 20 (1999) 411–417.
2. V. Chaloupecký, *Dětská kardiologie*, Galén, Praha, 2006.
3. D. Fukui, H. Kai, T. Takeuchi, et al., Longest Survivor of Pulmonary Atresia With Ventricular Septal Defect: Well-Developed Major Aortopulmonary Collateral Arteries Demonstrated by Multidetector Computed Tomography, *Circulation* 124 (2011) 2155–2157.
4. R.W. Collett, J.E. Edwards, Persistent Truncus Arteriosus: A Classification According to Anatomic Types, *Surgical Clinics of North America* 29 (1949) 1245–1270.
5. J. Vojáček, J. Kettner, *Klinická kardiologie*, Nucleus HK, Hradec Králové, 2012.
6. N. Ammash, C.A. Warnes, Cerebrovascular events in adult patients with cyanotic congenital heart disease, *Journal of the American College of Cardiology* 28 (1996) 768–772.
7. D. Smíšková, Ložiskové nitrolební procesy infekční etiologie, *Neurologie pro praxi* 7 (2006) 134–137.
8. M. Mut, G. Dinç, S. Naderi, On the report of the first successful surgical treatment of brain abscess in the Ottoman Empire by Dr. Cemil Topuzlu in 1891, *Neurosurgery* 61 (2007) 869–872; discussion 872.
9. M. Sameš, *Neurochirurgie: učebnice pro lékařské fakulty a postgraduální studium příbuzných oborů*, Maxdorf, Praha, 2005.
10. C.A. Fischbein, A. Rosenthal, E.G. Fischer, et al., Risk factors of brain abscess in patients with congenital heart disease, *American Journal of Cardiology* 34 (1974) 97–102.
11. M. Arlotti, P. Grossi, F. Pea, et al., Consensus document on controversial issues for the treatment of infections of the central nervous system: bacterial brain abscesses, *International Journal of Infectious Diseases* 14S4 (2010) S79–S92.
12. M. Takeshita, M. Kagawa, S. Yato, et al., Current treatment of brain abscess in patients with congenital cyanotic heart disease, *Neurosurgery* 41 (1997) 1270–1278; discussion 1278–1279.
13. C.T. Ong, C.F. Tsai, Y.S. Wong, S.C. Chen, Epidemiology of brain abscess in Taiwan: A 14-year population-based cohort study, *PLoS One* 12 (2017) e0176705.
14. G.K. Prusty, Brain abscesses in cyanotic heart disease, *Indian Journal of Pediatrics* 60 (1993) 43–51.
15. M. Ashraf, S. Ahmed, S. Ahmad, M. Hussain, Burr Hole Aspiration of Brain Abscess in Children with Cyanotic Heart Disease, *Journal of the College of Physicians and Surgeons-Pakistan* 27 (2017) 483–485.



CURRICULUM VITAE

Po promoci v roce 2004 MUDr. Eva Hlavinová nastoupila na Interní kardiologickou kliniku FN Brno, kde pracuje doposud. Věnuje se zejména neinvazivní kardiologii a léčbě hypertenze. V současnosti se připravuje na atestaci z kardiologie.

Pravokomorová stimulační elektroda komplikující radiofrekvenční ablací kavotrikuspidálního isthmu

Marek Hozman^a, Petr Peichl^b, Alexandr Schee^a

^a Kardiocentrum Karlovarské krajské nemocnice, a.s., Karlovy Vary, Česká republika

^b Klinika kardiologie, Institut klinické a experimentální medicíny, Praha, Česká republika

SOUHRN

Klíčová slova:

Ablace

Flutter síní

Intrakardiální echokardiografie

Obtížná radiofrekvenční ablace typického flutteru síní je obvykle způsobena anatomickými variantami kavotrikuspidálního isthmu. Prezentujeme případ 66letého pacienta s rekurentním typickým flutterem síní navzdory opakovaným ablacím v minulosti. Intrakardiální echokardiografie odhalila těsný vztah stimulační elektrody a kavotrikuspidálního isthmu jako pravděpodobnou příčinu opakovaných rekondukcí. Byla provedena úspěšná radiofrekvenční ablace pod kontrolou intrakardiální echokardiografie.

© 2018, ČKS.

ABSTRACT

Keywords:

Ablation

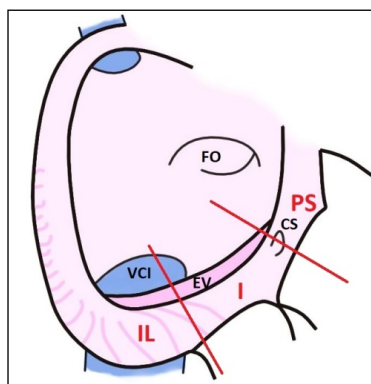
Flutter

Intracardiac echocardiography

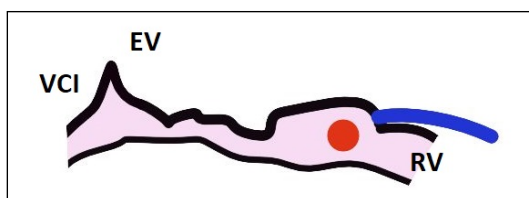
Difficult radiofrequency ablation of typical atrial flutter is usually caused by anatomical variants of the cavo-tricuspid isthmus. We report a case of 66-year-old patient with recurrent typical atrial flutter despite previous repeated ablations. Intracardiac echocardiography revealed close relationship between the right ventricular pacemaker lead and the cavo-tricuspid isthmus as the probable cause of repeat reconductions. A successful radiofrequency ablation guided by intracardiac echocardiography was performed.

Úvod

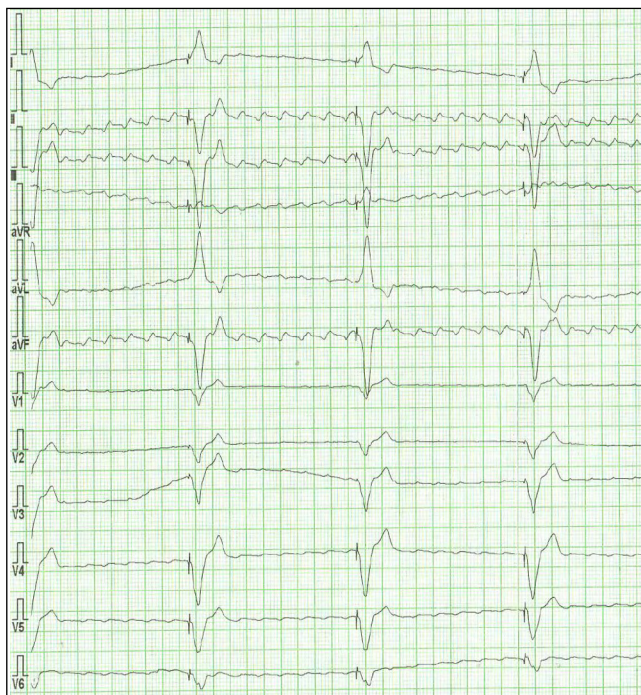
Typický flutter síní je běžnou makroreentry supraventrikulární arytmii s dobře definovaným elektrofyziologickým substrátem. Ten sestává z anatomické nebo funkční blokády vedení podél crista terminalis a Eustachovy řasy v kombinaci s oblastí pomalého vedení, kterou představuje kavotrikuspidální isthmus (CTI). Anatomicky se CTI dělí na tři části: paraseptální (septální), inferiorní a inferolaterální (obr. 1, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=499>).¹ Díky charakteru reentry okruhu a relativní rezistenci arytmie na antiarytmickou terapii se v posledních dekádách stala léčebnou modalitou volby radiofrekvenční ablace (RFA).² Principem RFA typického flutteru síní je vytvoření lineární léze od trikuspidálního anulu k okraji dolní duté žíly obvykle v inferiorní části isthmu, a tím dosažení bidirekční blokády vedení kritickou strukturou reentry okruhu (obr. 2, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=498>). Technika výkonu se může v detailech lišit v závislosti na zvyklostech daného pracoviště (např. různé typy diagnostických i ablačních katétrů, „point by point“ nebo „pullback“ ablace). Katétr jsou při ablací navigovány pomocí skia-



Obr. 1 – Schéma pravé síně a CTI. CS – ústí koronárního sinu; EV – Eustachova chlopeč; FO – fossa ovalis; VCI – dolní dutá žíla; červeně dělení CTI (I – inferiorní; IL – inferolaterální; PS – paraseptální).



Obr. 2 – Schéma sagitálního průřezu inferiorní porcí CTI (optimální rovina ablační linie). EV – Eustachova chlopeč; RV – myokard pravé komory; VCI – okraj dolní duté žíly; červeně pravá koronární tepna; modře trikuspidální chlopeč; patrné exkavace ve střední části isthmu.



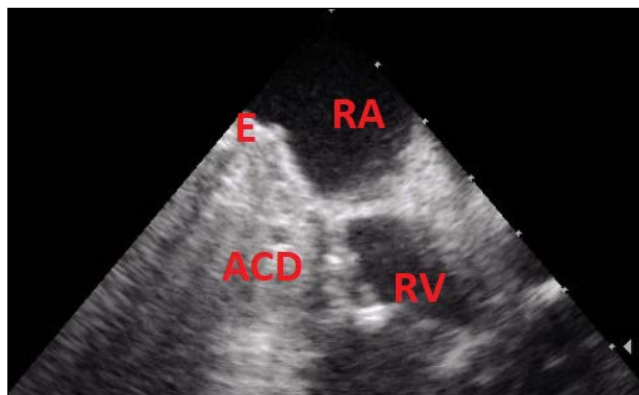
Obr. 3 – Vstupní EKG

skopie a intrakardiálních elektrogramů. Během výkonu se běžně používají konvenční mapovací techniky (aktivační mapování pomocí multipolárních katétrů nebo entrainment). Pokročilé navigační metody (3D elektroanatomické mapování nebo intrakardiální echokardiografie – ICE) se na většině pracovišť rutinně nepoužívají, u komplikovaných případů mohou přinést cenné informace.

V případě, že je dosažení bidirekčního bloku u ablace obtížné, mluvíme o tzv. rezistentním flutteru síní. Jais a spol. definovali jako výkon, kde je zapotřebí více aplikací, než jsou dvě standardní odchylky nad běžný průměr.³ Nejčastější příčinou jsou anatomické odchylky CTI ve smyslu prominující Eustachovy chlopně, přítomnosti recesů v průběhu isthmu nebo prominujících musculi pectinati. Jejich incidenci na základě nálezů z intrakardiální echokardiografie se ve své práci zabýval Morton se spolupracovníky. Exkavace v průběhu isthmu byly přítomny u 73 % pacientů a výraznější trabekularizace u 66 % pacientů.⁴ Podrobnou představu o anatomických variantách CTI poskytuje práce Klimka–Piotrowské se spolupracovníky, ve které bylo analyzováno 140 sekčních nálezů s následujícími relativními četnostmi jednotlivých anatomických struktur: Eustachova chlopně 70,7 % (výrazněji prominující v 48,6 %), recesus pod Eustachovou chlopní 48,6 %, trabekularizace isthmu 62,1 %.⁵

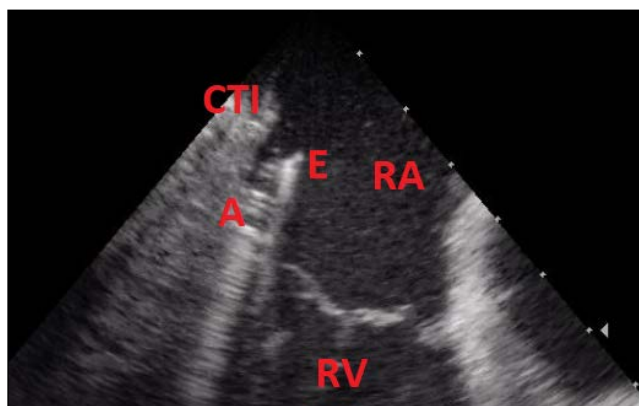
Kasuistika

Prezentujeme kasuistiku 66letého pacienta, který na jiném pracovišti podstoupil třikrát RFA CTI (první ablace byla komplikována vznikem kompletní atrioventrikulární blokády s nutností implantace dvoudutinového trvalého kardiostimulátoru). Pro nově vzniklou dyspnoe byl vyšetřen na našem pracovišti s nálezem rekurence typického „counterclockwise“ flutteru síní (obr. 3, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=502>) a indikován k reablacii. V mezidobí došlo ke spontánní verzi na sinusový rytmus. Fibrilace síní nebyla u pacienta nikdy klinicky dokumentována. Vzhledem k opakovaným procedurám v minulosti bylo přistoupeno k RFA s navigací ICE (AcuNav, Siemens Healthcare, Mountain View, CA, USA). Po zavedení instrumentária (duodekapolární katétr do pravé síně, dekapolární katétr do koronárního sinu, ablační katétr s 4mm chlazeným tipem a ICE sonda – obr. 4, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=500>) byla aktivačním mapováním pomocí multipolárního katétu v pravé síni potvrzena rekondukce CTI. Intrakardiální echokardiografická analýza CTI ukázala těsný vztah komorové elektrody a isthmu. Elektroda probíhala napříč přes CTI a v paraseptálním regionu byla přirostlá k endokardu, a tím bránila volné manipulaci a kontaktu katétu se svalovinou isthmu. To bylo nejspíše příčinou selhání předchozích výkonů. Za kontroly ICE se nakonec podařilo zavést ablační katétr pod pravokomorovou elektrodu (obr. 5 a 6; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=501>; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=503>) a v tomto místě dokončit bidirekční blok (obr. 7, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=504>). Celkem bylo

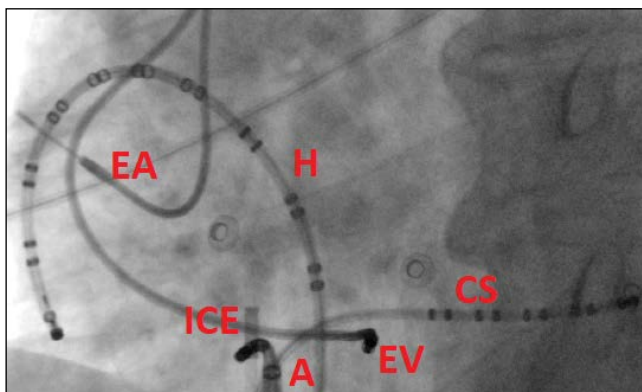


Obr. 4 – Intrakardiální echokardiografie. ACD – pravá koronární tepna; E – elektroda; RA – pravá síň; RV – pravá komora.

terclockwise“ flutteru síní (obr. 3, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=502>) a indikován k reablacii. V mezidobí došlo ke spontánní verzi na sinusový rytmus. Fibrilace síní nebyla u pacienta nikdy klinicky dokumentována. Vzhledem k opakovaným procedurám v minulosti bylo přistoupeno k RFA s navigací ICE (AcuNav, Siemens Healthcare, Mountain View, CA, USA). Po zavedení instrumentária (duodekapolární katétr do pravé síně, dekapolární katétr do koronárního sinu, ablační katétr s 4mm chlazeným tipem a ICE sonda – obr. 4, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=500>) byla aktivačním mapováním pomocí multipolárního katétu v pravé síni potvrzena rekondukce CTI. Intrakardiální echokardiografická analýza CTI ukázala těsný vztah komorové elektrody a isthmu. Elektroda probíhala napříč přes CTI a v paraseptálním regionu byla přirostlá k endokardu, a tím bránila volné manipulaci a kontaktu katétu se svalovinou isthmu. To bylo nejspíše příčinou selhání předchozích výkonů. Za kontroly ICE se nakonec podařilo zavést ablační katétr pod pravokomorovou elektrodu (obr. 5 a 6; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=501>; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=503>) a v tomto místě dokončit bidirekční blok (obr. 7, <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73&pid=1045&file=504>). Celkem bylo



Obr. 5 – Intrakardiální echokardiografie. A – ablační katétr; CTI – kavotrikuspidální isthmus; E – elektroda; RA – pravá síň; RV – pravá komora.



Obr. 6 – Skatskopie LAO 30. A – ablační katétr; CS – katétr v koronárním sinu; EA – síňová elektroda; EV – komorová elektroda; H – katétr v pravé síni; ICE – sonda intrakardiální echokardiografie.

provedeno 15 aplikací radiofrekvenční energie (ablační parametry: maximální energie 35 W, maximální teplota 43 °C, maximální délka aplikace 60 s). Během pětíměsíčního sledování je pacient bez obtíží, v paměti kardiostimulátoru není dokumentována epizoda rychlé síňové arytmie.

Diskuse

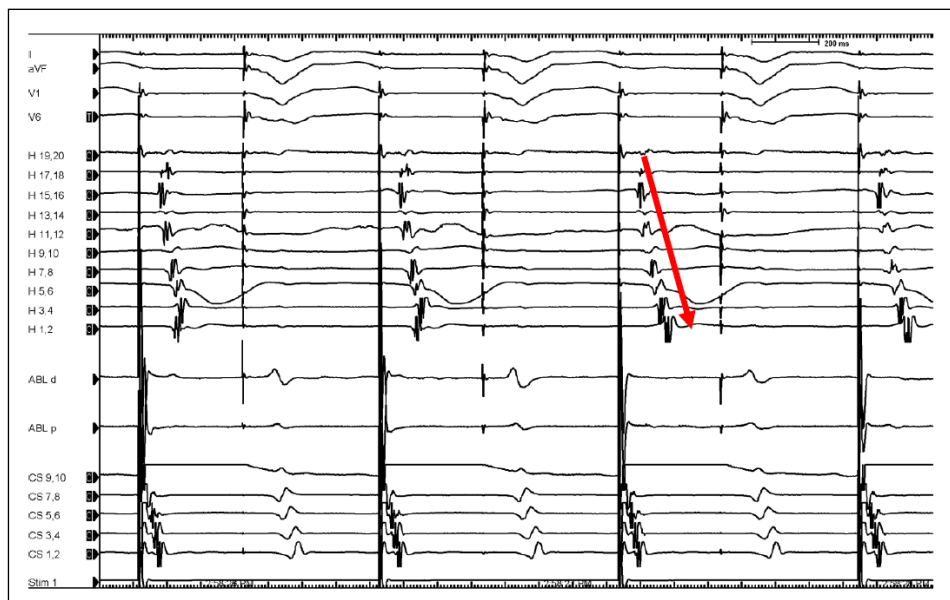
Radiofrekvenční ablace v oblasti inferolaterálního isthmu je obvykle asociována s nižší úspěšností dosažení bidirekční blokády především v důsledku prominujících musculi pectinati a nutnosti provedení delší ablační linie.¹ A priori jsme proto zvolili ablacii v inferiorní porci CTI, jakkoli nebyla patrna adheze stimulační elektrody v inferolaterální části.

Přínos ICE u prezentovaného případu je zjevný. Kromě detekce anatomických odchylek umožňuje tato metoda

též v reálném čase sledovat kontakt ablačního katétru s endokardem, detekci periprocedurálních komplikací ještě před jejich klinickou manifestací a v neposlední řadě je použití ICE spojeno s kratším časem skatskopie. Z ostatních zobrazovacích metod lze teoreticky při RFA CTI použít angiografii pravé síně, 3D transezofageální echokardiografii (TEE) nebo 3D elektroanatomické mapování,⁶ tyto metody se jeví v porovnání s ICE méně výhodné. Angiografie pravé síně poskytuje pouze dvourozměrné zobrazení, nelze ji provádět v reálném čase a představuje riziko spojené s podáním kontrastní látky (anafylaxe, kontrastem indukovaná nefropatie). 3D TEE umožňuje vizualizaci ablačního katétru v reálném čase a redukuje skatskopický čas,⁷ vyžaduje ale celkovou anestezii, což brání jejímu širšímu využití v klinické praxi. 3D elektroanatomické mapování je metoda spojená s významnou redukcí skatskopického času, znamená ale i vyšší ekonomickou zátěž a nevede k vyšší úspěšnosti procedury⁸ pravděpodobně pro nemožnost detailního zobrazení anatomie cílové oblasti.

Recentně Darrat se spolupracovníky publikovali podobný případ ablace CTI komplikované přítomností pravokomorové stimulační elektrody.⁹ V popsaném kasuistickém sdělení nebyla elektroda přirostlá k isthmu a pomocí smyčky z vodícího drátu a extrakční kličky zavedené jugulárním přístupem byla část elektrody pod skatskopickou kontrolou posunuta kranálně směrem. Následně bylo možné dosáhnout optimálního kontaktu ablačním katétre a dokončit výkon.

Pozoruhodnou *in vitro* studii zabývající se radiofrekvenční ablací v blízkosti stimulačních elektrod publikoval tentýž autor v roce 2016.¹⁰ Byl analyzován přímý účinek radiofrekvenční energie na integritu a funkci stimulačních elektrod s nejběžnějšími typy izolace (silikon, polyuretanový kopolymer a polyuretan 55D). Výsledky neprokázaly vliv radiofrekvenční energie na



Obr. 7 – Intrakardiální elektrogram zobrazující vznik blokády vedení kavotrikuspidálním isthmem; šipka znázorňuje vznik postupné aktivace duodekapolárního katétru (předchozí stah s časnější aktivací v H 1,2 a 3,4 vlivem zachovaného vedení CTI).

integritu izolace elektrod ani na jejich funkci. Je ale třeba podotknout, že byly popsány i jiné raritní nežádoucí účinky RFA v blízkosti stimulační elektrody jako například elektrický reset nebo přeprogramování přístroje.¹¹ Jakkoliv je nepravděpodobné přímé poškození elektrody radiofrekvenční energií, kompletní kontrola funkce implantovaného systému je nezbytnou součástí ablační procedury.

Závěr

Popsaná kasuistika dokumentuje méně obvyklou příčinu opakovaných neúspěšných ablací kavotrikuspidálního isthmusu. Dále ilustruje klíčovou roli intrakardiální echokardiografie v ovlivnění efektivity i bezpečnosti elektrofyzio-
logických výkonů.

Prohlášení autorů o možném střetu zájmů

Žádný střet zájmů.

Odkaz na článek online

<http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=73>

Literatura

1. S. K. Huang, J.M. Miller, Catheter ablation of cardiac arrhythmias. Elsevier Saunders, Philadelphia, PA, 2015.
2. P. Kirchhof, S. Benussi, D. Kotecha, et al., 2016 ESC Guidelines for the management of atrial fibrillation developed in collaboration with EACTS. *European Heart Journal* 37 (2016) 2893–2962.
3. P. Jais, M. Haissaguerre, D.C. Shah, et al., Successful Irrigated-Tip Catheter Ablation of Atrial Flutter Resistant to Conventional Radiofrequency Ablation. *Circulation* 98 (1998) 835–838.
4. J.B. Morton, P. Sanders, N.C. Davidson, et al., Phased-Array Intracardiac Echocardiography for Defining Cavotricuspid Isthmus Anatomy During Radiofrequency Ablation of Typical Atrial Flutter, *Journal of Cardiovascular Electrophysiology* 14 (2003) 591–597.
5. W. Klimek-Piotrowska, M.K. Holda, M. Koziej, et al., Clinical Anatomy of the Cavotricuspid Isthmus and Terminal Crest, *PLoS ONE* 11 (2016) e0163383.
6. G. Bencsik, Novel Strategies in the Ablation of Typical Atrial Flutter: Role of Intracardiac Echocardiography, *Current Cardiology Reviews* 11 (2015) 127–133.
7. F. Regoli, F.F. Faletra, G. Nucifora, et al., Feasibility and Acute Efficacy of Radiofrequency Ablation of Cavotricuspid Isthmus-Dependent Atrial Flutter Guided by Real-Time 3D TEE. *JACC: Cardiovascular Imaging* 4 (2011) 716–726.
8. G. Hindricks, S. Willems, J. Kautzner, et al., Effect of Electroanatomically Guided Versus Conventional Catheter Ablation of Typical Atrial Flutter on the Fluoroscopy Time and Resource Use: A Prospective Randomized Multicenter Study. *Journal of Cardiovascular Electrophysiology* 20 (2009) 734–740.
9. Y.H. Darrat, X.M. Gustavo, C. K. Waespe, et al., Snaring of the right ventricular lead during cavotricuspid isthmus ablation, *Clinical Case Reports* 5 (2017) 312–314.
10. Y.H. Darrat, A. Agarwal, G.X. Morales, et al., Radiofrequency and Cryo-Ablation Effect on Transvenous Pacing and Defibrillatory Lead Integrity: An In Vitro Study. *Journal of Cardiovascular Electrophysiology* 27 (2016) 976–980.
11. G.H. Crossley, J.E. Poole, M.A. Rozner, et al., The Heart Rhythm Society (HRS)/American Society of Anesthesiologists (ASA) Expert Consensus Statement on the Perioperative Management of Patients with Implantable Defibrillators, Pacemakers and Arrhythmia Monitors: Facilities and Patient Management, *Heart Rhythm* 8 (2011) 1114–1154.
12. M.E. Josephson, *Josephson's clinical cardiac electrophysiology: Techniques and interpretations*, Wolters Kluwer Health, Philadelphia, 2016.



CURRICULUM VITAE

V roce 2014 MUDr. Marek Hozman absolvoval obor všeobecné lékařství na 1. lékařské fakultě Univerzity Karlovy. Po promoci nastoupil do Kardiocentra Karlovarské krajské nemocnice, kde se dosud věnuje elektrofyzilogii a echokardiografii a připravuje se na atestaci z kardiologie. Od roku 2015 je postgraduálním studentem na 1. lékařské fakultě Univerzity Karlovy.

Anomální odstup kmene levé koronární tepny z protilehlého sinu s průběhem mezi velkými cévami

Petr Doškář, Martin Mates, Petr Neužil, Petr Ošťádal

Kardiologické oddělení, Nemocnice Na Homolce, Praha, Česká republika

SOUHRN

Klíčová slova:

Anomální odstup koronárních tepen
Levá koronární arterie
Myokardiální ischemie
Náhlá srdeční smrt

Nejdůležitější úlohou u anomálních nálezů koronárních tepen je zhodnocení jejich prognostického významu pro pacienta a rizika případné ischemie myokardu a náhlé srdeční smrti. Na základě těchto informací je nutné vždy individuálně stanovit další postup. Tato kasuistika ukazuje 59letou ženu s náhodně zjištěným anomálním odstupem levé koronární tepny (ACS) z proximální části pravé věnčité tepny s průběhem mezi velkými tepnami. Tato varianta je v literatuře popisována jako maligní forma. V současnosti ale nejsou velké prospektivní studie, na základě kterých by bylo pro tyto nemocné možné stanovit optimální diagnostický a léčebný postup. Popisovány jsou pouze rizikové faktory zhoršující prognózu, jako jsou symptomy suspektní z koronární ischemie, intramurální průběh proximální části ACS, angulace odstupu a možnost útlaku mezi aortou a plicnicí. Námí zvolený postup u pacientky byl s ohledem na věk nemocné, nízké fyzické nároky, absenci symptomů a vyšetření rizikových faktorů konzervativní. Po dobu několika následujících let se u ní neobjevily žádné symptomy suspektní z koronární ischemie. V diskusi jsou rozebrány důvody našeho rozhodnutí a práce zabývající se touto problematikou.

© 2018, ČKS.

ABSTRACT

Keywords:

Coronary artery anomalies
Left main coronary artery
Myocardial ischemia
Sudden cardiac death

The most important task in coronary artery anomalies is to evaluate their prognostic significance and to assess for the risk of myocardial ischemia and sudden cardiac death. Individually tailored treatment strategy is set based on the grounds of thorough risk stratification process. We present a case of a 59-year-old female with an anomalous left coronary artery (LCA) arising from the proximal part of the right coronary artery and running in between the large arteries. In the literature, this variant is described as malignant. However, to date there are no prospective trials available to determine the optimal management of patients suffering from such anomaly. Therefore, surrogate risk factors are used for prognostication; such are symptoms of myocardial ischemia, sharp angulation or intramural course of proximal part of LCA, or its compression between the aorta and the pulmonary artery. In this case, having evaluated all risk factors, we chose conservative approach – mainly due to patient's age, her low physical demands and absence of major symptoms. During the next few years the patient remained asymptomatic regarding coronary ischemia. In the discussion we further elaborate chosen strategy and we review published work on the topic.

Úvod

Vrozené anomálie koronárních tepen jsou vzácné. Jejich prevalence se liší v různých studiích v rozmezí od 1,3 % do 5,64 %, ¹⁻⁴ což je dáno mimo jiné i různými kritérii pro hodnocení anomálií. ⁵ Odstup levé koronární tepny z pravého koronárního sinu je raritní s prevalencí 0,03 %. ⁶ Existuje pět jeho variant; variantou označovanou jako maligní je interarteriální průběh tepny mezi aortou a plicnicí. ⁶ Ten je spojován s výrazně zvýšeným rizikem náhlé srdeční smrti (NSS) zvláště pak u mladých sportovců. ^{7,8} Cílem mnoha prací v posledních třech dekadách bylo objasnění patofyziologie ischemie myokardu a následné definování rizikových faktorů. ^{9,10} Kasuistika se věnuje pacientce s asymptomatickým náhodným nálezem anomálního odstupe ACS ze společného kmene obou koronárních arterií odstupujícího z pravého koronárního sinu. Vzhledem k interarteriálnímu průběhu ACS jsme zvažovali kardiochirurgický zákrok, což by bylo v souladu se staršími doporučeními American Heart Association/American College of Cardiology z roku 2008. V současnosti ale dochází k jasnější definici rizikových faktorů u této anomálie a přehodnocování doporučených postupů s důrazem na individuální rozhodnutí.

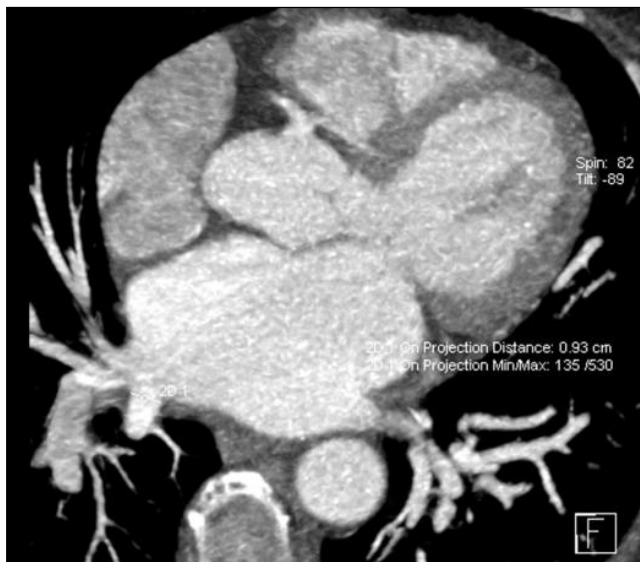
Kasuistika

U devětapadesátileté ženy s paroxysmální fibrilací síní byla indikována katetrizační izolace plicních žil. Před výkonem podstoupila kontrastní CT srdce k zobrazení morfologie levé síně a plicních žil. Vedlejším nálezem byl anomální odstup levé koronární tepny z krátkého společného kmene vycházejícího z pravého koronárního sinu. Z CT byl patrný interarteriální průběh ACS, ale bez intramurálního uložení její proximální části, což je velmi důležitý prognostický faktor (obr. 1–3; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=71&pid=1045&file=511>; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=71&pid=1045&file=512>; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=71&pid=1045&file=513>).



Obr. 1 – Naznačený průběh levé koronární tepny interarteriálně

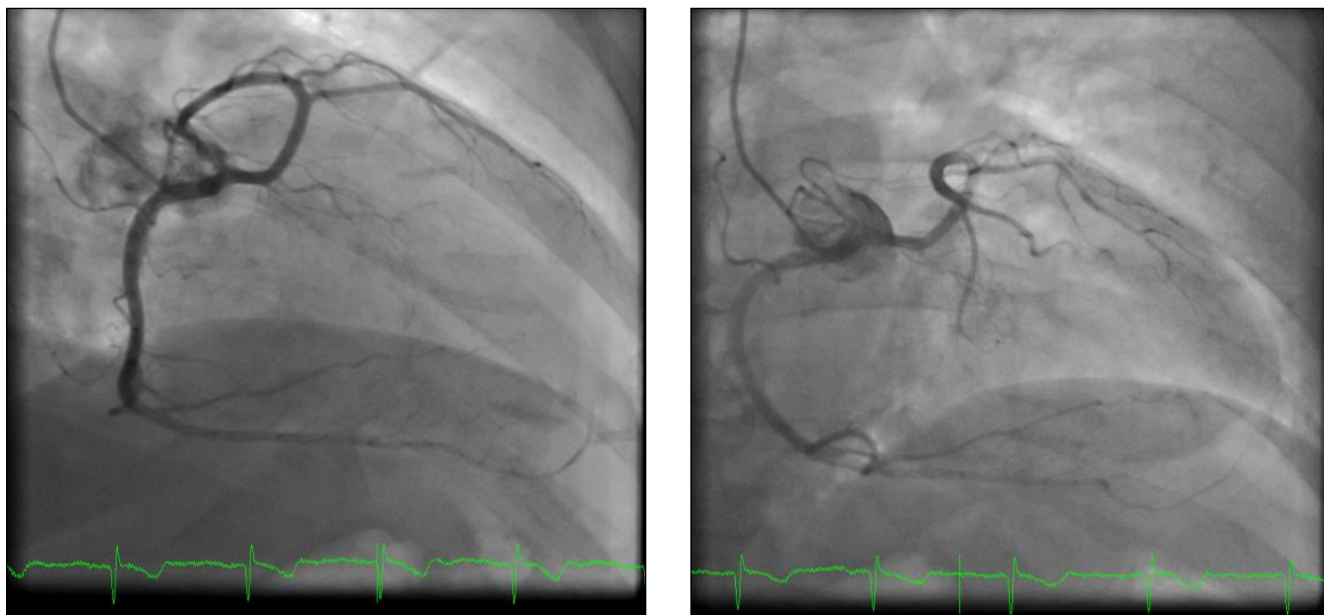
Pacientce byla provedena selektivní koronarografie s průkazem normálního průsvitu všech koronárních tepen a pouze lehké angulace odstupe levé koronární tepny (obr. 4, 5; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=71&pid=1045&file=514>; <http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=71&pid=1045&file=515>). Intrakoronární ultrazvuk (IVUS) nebyl v iniciální fázi diagnostického procesu prováděn. Bicyklová ergometrie proběhla s normálním výsledkem (test byl ukončen při tepové frekvenci 153/



Obr. 2 – CT zobrazení společného kmene levé a pravé koronární tepny odstupujícího z pravého koronárního sinu



Obr. 3 – CT rekonstrukce proximálního úseku koronárních arterií s patrným extramurálním průběhem



Obr. 4 a 5 – Koronarografie zobrazující odstup společného kmene levé a pravé koronární tepny z pravého koronárního sinu

min pro celkovou únavu, dosažená zátěž 150 W; pacientka neměla stenokardie, na EKG se nevyskytly patologické denivelace úseku ST). Klidové echokardiografické vyšetření bylo v mezích normy. Do medikace jsme přidali beta-blokátor s doporučením vynechat výraznější fyzickou zátěž. Vzhledem k maligní formě anomálie jsme u pacientky zvažovali kardiochirurgickou korekci, nemocná se nicméně k případné operaci nestavěla pozitivně. Při koronarografickém nálezů neuzúženého lumenu ACS a CT zobrazení extramurálního průběhu jsme IVUS neindikovali. Vzhledem k absenci symptomů, klidovému způsobu života, věku nad 50 let a absenci rizikových faktorů, jako je intramurální průběh anomální tepny s hypoplazií proximálního segmentu či ostrá angulace odstupu, jsme u nemocné volili konzervativní postup. Byla u ní provedena nekomplikovaná izolace plicních žil, po které je doposud bez recidiv fibrilace síní. V rámci dispenzarizace opakovaně pátráme po symptomech možné námahové ischemie a provádíme zátěžové vyšetření. Doposud vždy s negativním výsledkem. Jejich klinický stav je beze změny.

Diskuse

Zkušeností s pacienty, kteří mají anomální odstup a průběh koronárních tepen, není dostatek k vytvoření jasných doporučení, jež by se opírala o velké soubory pacientů. Odstup levé koronární arterie z pravého koronárního sinu a jeho varianty jsou raritní anomálií koronárních tepen. Z tohoto důvodu jsou současná doporučení pro management vyšetřovacího procesu a strategii léčby vytvořena na základě konsensu odborníků nebo na podkladě metaanalýz nerandomizovaných prací.¹⁰ V retrospektivní analýze Eckarta a spol.⁷ z roku 2004 na souboru 6,3 milionu vojáků armády USA ve věku 18–36 let byly přezkoumány lékařské záznamy a zprávy o pitvě u 277 netra-

matických smrtelných událostí, ze kterých se zjistilo, že 21 ze 64 úmrtí na srdeční selhání (34 %) bylo způsobeno koronárními anomáliemi. V 86 % vzniklo úmrtí v průběhu velké námahy nebo až po velké námaze, přičemž ve všech těchto případech se jednalo pouze o anomální odstup levé koronární tepny z protilehlého sinu. V roce 2008 vyšlo v guidelines American College of Cardiology a American Heart Association⁸ doporučení pro anomálii ACS s interarteriálním průběhem. Bez ohledu na symptomy byla doporučena chirurgická korekce této anomálie. Na základě zkoumání patofyziologie ischemie a náhlé srdeční zástavy na podkladě maligní arytmie se ale jako hlavní parametr v současnosti považuje přítomnost intramurálního průběhu proximální části tepny stěnou aorty. Pro ten jsou popsány tři základní rizikové charakteristiky:⁹

1. stupeň hypoplazie intramurálního segmentu,
2. vyjádření oválné deformace (index laterální komprese: poměr krátkého k dlouhému průměru průřezu tepny),
3. další progresse zúžení průměru a zvýraznění laterální deformace tepny při farmakologickém zátěžovém testu.

Dle Angeliniho kasuistik tří pacientů se symptomatickou anomálií ACS⁷ se index laterální komprese pohyboval od 48,6 % do 70,1 % v intramurálním úseku, všichni tito pacienti podstoupili chirurgickou korekci anomálie. Dané parametry je možné hodnotit při vyšetření IVUS, případně s dobutaminovým testem a objemovou zátěží rychlým podáním 500 ml fyziologického roztoku.⁹ Limitací IVUS s dobutaminovým testem je v současné době nemožnost měření systolických časů a přesné kvantifikace systolického oplošťování koronární tepny, nicméně kvalitativní fáze zúžení v případech z Angeliniho práce patrné bylo.⁹ Přílišná angulace tepny nejčastěji v místě jejího odstupu je dalším negativním prognostickým ukazatelem.¹¹ „Slit-

-like“ fenomén, neboli šterbinovité zúžení koronární tepny, souvisí jak s ostrou angulací, tak s dynamickým útlakem intramurálního segmentu mezi aortou a plicnicí při dilataci aortálního kořene.¹¹ Nadměrná fyzická zátěž tak může způsobit koronární ischemii progresí „slit-like“ fenoménu i možným spasmem tepny.¹² Tento dynamický faktor je ale obtížně kvantifikovatelný. Pokud není zúžení výrazné, je bezpečné použití IVUS. U některých pacientů ale může být manipulací katétry vyvolán spasmus refrakterní na nitráty s nutností stažení instrumentária.⁹ Prací, která podporuje mechanismus komprese tepny mezi velkými cévami podílející se na ischemii myokardu, je pokus Lima a spol.¹³ na teleti s anomálním interarteriálním průběhem ACS. Při mapování regionálního průtoku myokardu při infuzi dobutaminu a fenylefrinu, které v součinnosti způsobují arteriální hypertenzi a zvýšené metabolické nároky myokardu, bylo zjištěno, že při zátěži dochází k myokardiální ischemii. Nárůst fibrózy myokardu a hypertrofie myocytů, apoptózy a kapilární denzity naznačují regionální ischemii vyvolanou zánětlivou reakcí a remodelací myokardu.¹⁰

Přínos zátěžového testu ke stratifikaci vysoce rizikových pacientů s anomáliemi koronárních tepen není jednoznačný.¹² Výsledek může být jak falešně negativní, a to i u pacientů po předchozí resuscitaci, tak falešně pozitivní.¹ Při koronarografii je důležitým parametrem oploštění či případný útlak koronární tepny, nicméně i u pacientů po srdeční zástavě způsobené ischemií v povodí anomální koronární tepny nemusí být při následné koronarografii oploštění v klidu patrné.¹ Známé předchozí symptomy má pouze menší část pacientů po srdeční zástavě mladších 50 let. Současně se předpokládá, že vlivem věku a postupného ztlušťování cévní stěny a zvětšování její rigidity klesá riziko námahové hypoperfuze. Naproti tomu může docházet k dilataci kořene aorty a ke koronární ateroskleróze. Vznik projevů koronární ischemie u pacientů starších 50 let s intramurálním průběhem anomální koronární arterie může být dán vlivem postupné dilatace aortálního bulbu a akcelerací hypertenze (pro tuto teorii ale nejsou jasné důkazy).

Důležité je tedy komplexní zhodnocení všech nálezu, anamnézy a životního stylu pacienta s přihlédnutím k věku a poměru přínosu k riziku případného chirurgického výkonu. Posledním faktorem je postoj pacienta (zvláště pak asymptomatického) k případnému kardiologickému řešení anomálie. Žilní bypass není vzhledem k jeho trvanlivosti vhodný především u mladých pacientů. Optimálním kardiologickým řešením se zdá být reimplantace koronární tepny bez použití žilního bypassu nebo modifikované řešení s reimplantací nad konec intramurálního průběhu popisované výše. Dle doporučení American Association for Thoracic Surgery založeného na konsensu odborníků¹⁰ lze zvážit stenting zúženého segmentu pro pacienty vysoce rizikové ke kardiologickému výkonu – nicméně se jedná o doporučení ve třídě IIb/C, nejsou ale dostatečná data o dlouhodobém vlivu perkutánní koronární intervence při použití nových generací lékových stentů.

U mladých atletů s atypickými symptomy (nejasná námahová dušnost, bolest na hrudi, četná komorová extrasystolie) jsou indikovány zátěžové vyšetření, echokardiografie se zobrazením odstupů koronárních tepen a při

jejich nenalezení CT angiografie se zobrazením koronárního řečiště, a to i při negativním zátěžovém testu. Nalezení přesného diagnostického procesu a optimální strategie léčby u koronárních anomálií s vyšším rizikem SCD si bude vyžadovat další analýzy specifických postupů. Velmi důležité je individuální posuzování jednotlivých pacientů.

U naší pacientky jsme na základě zhodnocení anatomie koronární anomálie a dalších rizikových faktorů zvolili konzervativní postup a při pečlivém ambulantním sledování jsme doposud nezaznamenali známky klidové ani námahové ischemie myokardu.

Závěr

Náhodný nález asymptomatické anomálie ACS s interarteriálním průběhem při absenci intramurálního průběhu proximální části arterie a absenci významné stenózy či ostré angulace tepny a při negativním zátěžovém testu dle našich současných znalostí neznamená u pacienta nad 50 let se sedavým způsobem života jednoznačně indikaci ke kardiologické intervenci. Vzhledem k literárně popisovaným případům nového vzniku symptomů u této či obdobně rizikové anomálie až v pokročilejším věku je velký předpoklad, že při farmakologické intervenci a restrikci fyzické aktivity nedojde k náhlé srdeční smrti jako primárnímu projevu anomálie. Může dojít spíše k postupnému vzniku symptomů, což by znamenalo nutnost kontrolních vyšetření s přehodnocením dalšího postupu. V současnosti dostupné literární údaje jsou zatím zcela nedostatečné pro volbu nejhodnějšího postupu založeného na evidenci. Zdá se však, že při absenci známých rizikových faktorů a při pečlivém sledování je konzervativní postup možný a pro pacienta přínosný.

Prohlášení autorů o možném střetu zájmů

Žádný střet zájmů.

Odkaz na článek online

<http://www.cksonline.cz/coretvasa-case-reports/clanky.php?p=detail&id=71>

Literatura

1. P. Angelini, Coronary artery anomalies – Current clinical issues, definitions, classification, incidence, clinical relevance, and treatment guidelines, *Texas Heart Institute Journal* 29 (2002) 271–278.
2. O. Yamanaka, R.E. Hobbs, Coronary artery anomalies in 126,595 patients undergoing coronary arteriography, *Catheterization and Cardiovascular Diagnosis* 21 (1990) 28–40.
3. B.P.A. Carvalho, M.A. Dos Santos, W.P. Guimarães Neto, et al., Late Diagnosis of Anomalous Aortic Origin of a Coronary Artery from the Inappropriate Sinus of Valsalva during Investigation of Chest Pain, *Case Reports in Cardiology* 2018 (2018) 3879243.
4. A.T. Marler, J.A. Malik, A.M. Slim, Anomalous Left Main Coronary Artery: Case Series of Different Courses and Literature Review, *Case Reports in Vascular Medicine* 2013 (2013) 380952.
5. P. Angelini, Coronary Artery Anomalies – An Entity in Search of an Identity, *Circulation* 115 (2007) 1296–1305.
6. M.K. Cheezum, R.R. Liberthson, N.R. Shah, et al., Anomalous Aortic Origin of a Coronary Artery From the Inappropriate Sinus of Valsalva, *Journal of the American College of Cardiology* 69 (2017) 1592–1608.

7. R.E. Eckart, S.L. Scoville, C.L. Campbell, et al., Sudden death in young adults: a 25-year review of autopsies in military recruits, *Annals of Internal Medicine* 141 (2004) 829–834.
8. C.A. Warnes, R.G. Williams, T.M. Bashore, et al., ACC/AHA 2008 guidelines for the management of adults with congenital heart disease, *Circulation* 118 (2008) 2395–2451.
9. P. Angelini, R.P. Walmsley, A. Libreros, D.A. Ott, Symptomatic anomalous origination of the left coronary artery from the opposite sinus of valsalva clinical presentations, diagnosis, and surgical repair, *Texas Heart Institute Journal* 33 (2006) 171–179.
10. J.A. Brothers, M.A. Frommelt, R.D.B. Jaquiss, et al., Expert consensus guidelines: Anomalous aortic origin of a coronary artery. *Journal of Thoracic and Cardiovascular Surgery* 153 (2017) 1440–1457.
11. M. Ali, A. Henley, E.P. McFadden, C.J. Vaughan, Coronary artery anomalies: a practical approach to diagnosis and management, *Heart Asia* 3 (2011) 8–12.
12. P. Angelini, S. Villason, A.V. Chan Jr., J.G. Diez, Normal and anomalous coronary arteries in humans. In: P. Angelini, *Coronary artery anomalies: a comprehensive approach*. Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, 1999, 27–150.
13. M.J. Lim, M.J. Forsberg, R. Lee, M.J. Kern, Hemodynamic abnormalities across an anomalous left main coronary artery assessment: evidence for a dynamic ostial obstruction, *Catheterization and Cardiovascular Interventions* 63 (2004) 294–298.



CURRICULUM VITAE

V roce 2010 ukončil studium na Lékařské fakultě v Plzni Univerzity Karlovy v Praze. Dále MUDr. Petr Doškár pracuje na Kardiologickém oddělení Nemocnice Na Homolce, kde se věnuje převážně echokardiografii.

www.case-coretvasa.cz



Cor et Vasa
CASE REPORTS