



Ехокардіографічні паралелі коронарних фістул у дітей

Л.П. Глебова¹, І.В. Андрущенко²

¹Національний медичний університет імені О.О. Богомольця, Київ, Україна

²ДУ «Всеукраїнський центр материнства та дитинства НАМН України», Київ, Україна

Анотація. *Мета:* узагальнити інформацію щодо коронарно-серцевих фістул (КСФ) у дітей, встановити наявність і залежність клінічних проявів у дитини з КСФ від їх розміру, розробити алгоритм контролю за станом серцево-судинної системи дітей, що мають КСФ. *Об'єкт і методи дослідження.* Обстежено 5 дітей віком 8–12 років (середній вік $10 \pm 0,9$ року), які займалися різними видами спорту. Усім дітям виконано електрокардіографію, ехокардіографію з кольоровим доплером. *Результати.* Показники морфофункціонального стану серця, гемодинаміка знаходилися в межах вікової норми. Наявність типових скарг на задишку й серцебиття, біль за грудниною під час фізичних навантажень; безперервного шуму — аускультативно та більшого за 2 мм патологічного шунтування, потребує консультації кардіохірурга щодо вирішення подальшої тактики ведення пацієнта. За наявності КСФ менше ніж 2 мм та відсутності типових скарг і фізикальних даних тактика ведення полягає в спостереженні, ехоКГ — 1 раз на рік. *Висновки.* Безсимптомні КСФ малих розмірів можуть бути віднесені до групи «малі структурні аномалії серця». КСФ можуть не визначатися при рутинному інструментальному обстеженні, але при цьому вони залишаються «німою» загрозою для життя пацієнта. При проведенні ехокардіографічних скринінгів слід обов'язково звертати увагу на анатомію коронарних артерій. Для попередження ускладнень КСФ необхідним є спостереження кардіолога та при перших типових для них скаргах — кардіохірурга. Дітям з КСФ, більшими ніж 2 мм, рекомендовано обмежити фізичне навантаження (група з фізичної культури — підготовча) і виключити заняття в спортивних секціях.

Ключові слова: діти, коронарно-серцеві фістули, ехокардіографія.

Вступ

Німецький анатом Вільгельм Краузе вперше повідомив про феномен коронарно-серцевих фістул (КСФ) ще у 1865 р., хоча їх клінічне значення тривалий час не було достатньо зрозумілим. Вважають, що аномалія формується в ранній період внутрішньоутробного розвитку, коли серце плода має синусоїдні сполучення для підтримки кровотоку в міокарді. Якщо вони не закриваються до народження, це може означати формування КСФ [1, 2].

Внаслідок переважно безсимптомного перебігу КСФ недостатньо розпізнають та діагностують, і їх поширеність у загальній популяції становить близько 0,002%, хоча доступність катетерної коронарографії підвищує цей показник до 0,05–0,25%. Останнім часом повідомляють, що поширеність КСФ, оцінена за допомогою коронарної КТ-ангіографії, сягає 0,19–0,91% [3, 4].

Спектр клінічних проявів та серцево-судинних ускладнень КСФ варіюють від задишки, нападів стенокардії та серцевої аритмії до бактеріального ендокардиту, симптоматичної ішемії міокарда внаслідок феномену обкрадання та раптової серцевої смерті. При цьому тромбоз чи розрив фістули або асоційованої з нею артеріальної анеризми можуть розвинути вторинно, і подібні ускладнення КСФ відмічають у 11% пацієнтів віком до 20 років і 35% — віком старше 20 років. Варто зазначити, що КСФ великого розміру з шунтом зліва направо підвищує ризик перевантаження об'ємом малого кола кровообігу і розвитку легеневої гіпертензії [3–7].

З метою встановлення наявності і залежності клінічних проявів у дітей з КСФ від їх розміру, розроблення алгоритму контролю за станом серцево-судинної системи дітей, що мають КСФ, проведено аналіз клінічних випадків у дітей з цією патологією.

Об'єкт і методи дослідження

Під наглядом перебувало 5 дітей віком 8–12 років (середній вік $10 \pm 0,9$ року), усі пацієнти були хлопчиками, які займалися різними видами спорту. Діти направлені на планове обстеження до приватної клініки «Кіндерклініка» до дитячого кардіолога з виконанням електрокардіографії (ЕКГ) та ехокардіографії (ехоКГ) з кольоровим доплером. ЕхоКГ виконано на апараті «MINDRAY DC40» секторальним датчиком P4-2, частота 2,0–3,5 МГц.

Дослідження виконані з дотриманням основних положень Правил етичних принципів проведення наукових медичних досліджень за участю людини, затверджених Гельсінською декларацією 1964–2013 рр., Належної клінічної практики 1996 р., Директиви Європейського економічного співтовариства від 24.11.1996 р. № 609, наказів Міністерства охорони здоров'я України від 23.09.2009 р. № 690, від 14.12.2009 р. № 944, від 03.08.2012 р. № 616.

Результати та їх обговорення

Нижче наведено клінічний випадок, який демонструє різницю в скаргах, фізикальних даних, результатах ехоКГ залежно від розміру фістули і, як наслідок, різницю в тактиці ведення та спостереження цих дітей.

Клінічний випадок

Хлопчик, 11 років, займається великим тенісом. Направлений планово на консультацію до кардіолога зі скаргами на задишку й серцебиття при фізичних навантаженнях, які з'явилися 6 міс тому, іноді дитину турбував біль за грудниною під час фізичних навантажень.

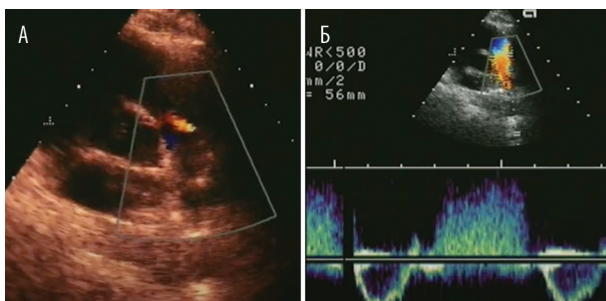
Аускультативно — неінтенсивний безперервний шум, що нагадував судинний, в 2-му міжребер'ї ліворуч.

ЕКГ: ритм синусовий, міграція водія ритму, на вдиху — стабільний синусовий ритм, електрична вісь серця розташована вертикально. Реполаризаційні порушення, ознаки спортивного серця відсутні.

ЕхоКГ: співвідношення порожнин серця відповідає віку, систолічна, діастолічна функції міокарда не порушені, клапанний апарат без патологічних змін, гемодинаміка — в межах вікової норми.

При проведенні кольорового доплерівського картування (КДК) по короткій осі визначали патологічне шунтування в стовбур легеневої артерії ближче до зовнішньої її стінки, майже під клапаном, з розміром гирла більше 2,5 мм, яке дуже нагадувало спектр відкритої артеріальної протоки, але з нетиповою локалізацією. Імпульсно-хвильовий доплер реєстрував наявність шунта в стовбур легеневої артерії через КСФ (рис. 1).

Рисунок 1 Хлопчик, 11 років. КСФ 2,5 мм



Дитина проконсультована дитячим кардіохірургом в ДУ «Національний інститут серцево-судинної хірургії імені М.М. Амосова НАМН України», колегіально розроблена тактика очікування і спостереження з обмеженням фізичного навантаження. Контроль ехоКГ через 6 міс.

У решти 4 хлопчиків не було скарг. Аускультативно шуми серця відсутні. ЕКГ відповідала віковим нормам. При ехоКГ розміри фістул не перевищували 1,5–2 мм, і це були випадкові знахідки. Локалізація коронарно-легеневих фістул була різною. Тактика ведення пацієнтів — спостереження. Фізичне навантаження — без обмежень. Планове ехоКГ 1 раз на рік (рис. 2).

За даними літератури, візуалізація КСФ при проведенні пацієнтам ехоКГ становить 0,2–0,6% [1, 8]. Показано [9], що кольоровий доплер при ехоКГ демонстрував аномальний кровотік, який дозволив припустити наявність фістули коронарної артерії (КА) лише у 23,1% випадків, діагностованих за допомогою КТ-ангіографії. ЕКГ-показники істотно не відрізнялися між пацієнтами з КСФ і без неї, а також між пацієнтами різного віку, що повністю збігається з результатами обстежень наших пацієнтів. Параметри морфофункціонального стану серця,

гемодинаміка також знаходилися в межах вікової норми. Лише один із обстежених хлопчиків мав аускультативно неінтенсивний безперервний шум, схожий на судинний, в 2-му міжребер'ї ліворуч, що відповідає даним літератури. Жоден з пацієнтів не мав вад розвитку серцево-судинної системи.

Клініко-анатомічні варіанти та перебіг захворювання

Найчастіше відмічають поодинокі фістули, але множинні також не є рідкістю [2, 8]. КСФ анатомічно можуть бути пов'язані з правою чи лівою КА. Більшість вроджених фістул відходять від передньої міжшлуночкової гілки лівої КА. Фістули огинаючої гілки лівої КА виникають рідше. КСФ можуть призводити до значущого обкрадання коронарного кровотоку, ішемічних змін, інфаркту міокарда, застійної серцевої недостатності, інфекційного ендокардиту, порушень ритму та навіть раптової смерті [9–14].

Усі фістули розділяють на вроджені (98–99%), які в 55–88% випадків є ізольованими, а в 5–30% можуть поєднуватися з іншими вадами розвитку [7], та набуті, що формуються після хірургічних втручань на міокарді або коронарних судинах.

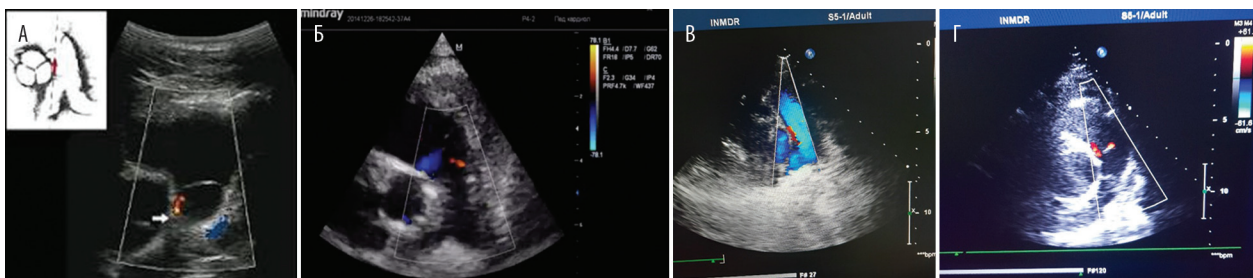
Клінічне значення має тип дренивання фістули, що зумовлює тяжкість симптоматики. За цією ознакою виділяють два наступних типи.

Артеріовенозні. Такі коронарні аномалії становлять близько 90%, в основному є вродженими, з формуванням з'єднання КА і правих відділів серця, коронарних синусів, легеневого стовбура. За даними літератури, фістула від КА до легеневої артерії є найпоширенішим типом КСФ у дорослих, на який припадає 76,8–89,5% випадків [3]. При цьому лише 7,5% пацієнтів із фістулою від КА до легеневої артерії були віком молодше 18 років [9].

Артеріоартеріальні. Цей тип вади включає анастомози судин, що живлять міокард, з лівим передсердям або шлуночком, які відмічають у 10% хворих з КСФ. Понад 50% мальформацій утворюються в правій КА, 46% — у лівій, 4% становлять білатеральні фістули в обох коронарних судинах. Відповідно до діаметра шунта розрізняють малі КСФ з розміром менше 2 мм і великі, які мають вхідний отвір, більший ніж 2 мм, зі схильністю до збільшення з часом. Більшість малих коронарних аномалій має безсимптомний перебіг [1, 6].

Найбільш поширеним фізикальним феноменом КСФ у пацієнтів є безперервний шум, що відображає систолодіастолічний кровотік у великих фістулах. Пов'язано це з тим, що зі збільшенням віку пацієнта фістула поступово збільшується в розмірах, як наслідок — посилення потоку через неї. Навпаки, спонтанне закриття фістули виникає досить рідко і становить 1,0–2,0% випадків [6, 15].

Рисунок 2 Зображення коронарно-легеневих фістул розміром <2 мм у 4-х хлопчиків





Основний патофізіологічний механізм полягає в розвитку синдрому обкрадання в ділянках міокарда, які розташовані дистально від фістули. Саме в дистальних сегментах КА відзначають аневризмальні зміни [16]. В ураженій КА поступово знижується кровотік і діастолічний тиск, що зумовлено скиданням більшої частини крові в порожнину з нижчим тиском. Щоб компенсувати цей стан, діаметр КА збільшується, а її гирло розширюється, що й веде до ускладнень.

З часом коронарна судина дилатується настільки, що стає нездатною забезпечити адекватне кровопостачання серцевого м'яза.

Формування ускладнень КСФ і тактика ведення хворих залежать переважно від розміру шунта. Вважається, що фістули до 2 мм мають безсимптомний перебіг і не впливають на якість життя. КСФ розміром >2 мм вже можуть клінічно супроводжуватися безперервним шумом [3, 4, 15], що спонукає клініциста призначити інструментальні методи обстеження.

ЕхоКГ вважають золотим стандартом та методом скринінгу діагностики КСФ у дітей, який показує наявність патологічного шунта, залежно від його розміру можлива візуалізація дилатації ураженої КА. Для вимірювання об'ємного кровотоку через фістулу проводять КДК в реальному часі в 3-х вимірах [5]. Найчастіше на ехоКГ направляють дітей за наявності шуму [3].

Можливості вибору тактики лікування

У дітей та пацієнтів молодого віку з КСФ зазвичай клінічні прояви відсутні. З віком можуть з'являтися скарги і зростати частота ускладнень. На сьогодні досі немає єдиної думки щодо лікування невеликих фістул. Деякі автори рекомендували закривати хірургічно всі КСФ незалежно від симптомів, іншими було рекомендовано консервативне лікування, але алгоритм контролю КСФ, тобто стану серцево-судинної системи, в цих дітей відсутній [13]. Лікування за допомогою транскатетерного або хірургічного закриття дає найкращі результати за умови, що вони виконуються на ранніх стадіях захворювання [8]. Нами не розглядалося хірургічне або черезшкірне закриття КСФ розміром <2 мм у будь-якого з пацієнтів. Дитині, яка консультована кардіохірургом, у зв'язку з розміром КСФ (2,5 мм) та скаргами також не рекомендоване хірургічне лікування. Тому й розроблена відповідна тактика ведення цих пацієнтів.

Алгоритм ведення пацієнтів

Консервативне лікування. Дітям з фістулами малого розміру без клінічних проявів рекомендовано спостереження з проведенням ехоКГ контролю раз на рік. При виникненні скарг, типових для коронарної недостатності, під час фізичної активності показані симптоматичне лікування та консультація кардіохірурга.

Хірургічне лікування. Поява симптомів, ускладнень і наявність значного шунта є основними показаннями до хірургічного або черезшкірного закриття КСФ [5, 14]. Оперативне втручання — метод радикального лікування коронарної фістули з гирлом >2 мм, а також розширенням коронарної судини >5 мм. При виборі оптимальної хірургічної методики враховуються кількість фістульних отворів, ступінь гемодинамічних порушень та локалізація коронарної аномалії. Радикальне лікування передбачає транскатетерну оклюзію коронарної фістули або хірургічну корекцію аномалії [17].

Висновки

Безсимптомні КСФ малих розмірів можуть бути віднесені до групи «малі структурні аномалії серця». При цьому КСФ можуть мати безсимптомний перебіг і не визначатися при рутинному інструментальному обстеженні, але при цьому вони залишаються «німою» загрозою для життя пацієнта.

При проведенні ехоКГ скринінгів слід обов'язково звертати увагу на анатомію КА.

Для попередження ускладнень КСФ необхідним є спостереження кардіолога та при перших типових для них скаргах — кардіохірурга.

Дітям з КСФ розміром >2 мм рекомендовано обмежити фізичне навантаження (група з фізичної культури — підготовча) і виключити заняття в спортивних секціях.

Список використаної літератури

1. www.bsmu.edu.ua/blog/koronarno-sercevi-fistuly/
2. Jama A., Barsoum M., Bjarnason H. et al. (2011) Percutaneous closure of congenital coronary artery fistulae: results and angiographic follow-up. *JACC Cardiovasc. Interv.*, 4(7): 814–21.
3. Goo H.W. (2021) Imaging Findings of Coronary Artery Fistula in Children: A Pictorial Review. *Korean. J. Radiol.*, 22(12): 2062–2072.
4. Ouchi K., Sakuma T., Ojiri H. (2020) Coronary artery fistula in adults: Incidence and appearance on cardiac computed tomography and comparison of detectability and hemodynamic effects with those on transthoracic echocardiography. *J. Cardiol.*, 76(6): 593–600.
5. Радченко М.П., Довгалик А.А., Кузьменко Ю.Л. та ін. (2017) Власний досвід діагностики та лікування коронаро-серцевих фістул. *Вісник серцево-судинної хірургії*, 3: 114–116.
6. Challooumas D., Pericleous A., Dimitrakaki I.A. et al. (2014) Coronary arteriovenous fistulae: a review. *Int. J. Angiol.*, 23(1): 1–10.
7. Wang X., Pang C., Liu X. et al. (2020) Congenital coronary artery fistula in pediatric patients: transcatheter versus surgical closure. *BMC Cardiovasc. Disord.*, 16;20(1): 484.
8. Mangunkia C.V. (2012) Coronary artery fistula. *Ann. Thorac. Surg.*, 93(6): 2084–92.
9. Li N., Zhao P., Wu D. et al. (2020) Coronary artery fistulas detected with coronary CT angiography: a pictorial review of 73 cases. *Br. J. Radiol.*, 93(1108): 20190523.
10. Dodge-Khatami A., Mavroudis C., Backer C.L. (2020) Congenital Heart Surgery Nomenclature and Database Project: anomalies of the coronary arteries. *Ann. Thorac. Surg.*, 69(4 Suppl.): S270–S297.
11. Gowda S.T., Forbes T.J., Singh H. et al. (2013) Remodeling and thrombosis following closure of coronary artery fistula with review of management: large distal coronary artery fistula — to close or not to close? *Catheter. Cardiovasc. Interv.*, 82(1): 132–42.
12. Ibrahim M.F., Sayed S., Elasar A. et al. (2012) Coronary fistula between the left anterior descending coronary artery and the pulmonary artery: Two case reports. *J. Saudi Heart Assoc.*, 24(4): 253–256.
13. Ramoğlu M.G., Karagözlü S., Bayram O. et al. (2022) Coronary-Pulmonary Artery Fistulas In Children: A Single-Center Experience. *East. J. Med.*, 27(3): 364–369.
14. Song Y., Choi E.S., Kim D.H. et al. (2024) Surgical Management of Coronary Artery Fistulas in Children. *J. Chest Surg.*, 57(1): 79–86.
15. Yun G., Nam T.H., Chun E.J. (2018) Coronary Artery Fistulas: Pathophysiology, Imaging Findings, and Management. *Radiographics*, 38(3): 688–703.
16. Li J.L., Huang L., Zhu W. et al. (2019) The evaluation of coronary artery-to-pulmonary artery fistula in adulthood on 256-slice CT coronary angiography: Comparison with coronary catheter angiography and transthoracic echocardiography. *J. Cardiovasc. Comput. Tomogr.*, 13(1): 75–80.
17. Frommelt P., Lopez L., Dimas V.V. et al. (2020) Recommendations for Multimodality Assessment of Congenital Coronary Anomalies: A Guide from the American Society of Echocardiography: Developed in Collaboration with the Society for Cardiovascular Angiography and Interventions, Japanese Society of Echocardiography, and Society for Cardiovascular Magnetic Resonance. *J. Am. Soc. Echocardiogr.*, 33(3): 259–294.

Echocardiographic parallels of coronary fistulas in children

L.P. Glebova¹, I.V. Andrushchenko²

¹Bogomolets National Medical University, Kyiv, Ukraine

²All-Ukrainian Center of Motherhood and Childhood of the NAMS of Ukraine, Kyiv, Ukraine

Abstract. *The aim* is to summarize information about coronary artery fistulas (CAFs) in children, to establish the presence and dependence of clinical manifestations in children with CAFs depending on their size, to develop an algorithm for monitoring the state of the cardiovascular system of children with CAFs. **Materials and methods.** 5 children aged 8–12 years (average age 10±0.9), who were engaged in various sports. All children underwent electrocardiography, echocardiography with color Doppler. **Results.** Indicators of the morphofunctional state of the heart, hemodynamics were within the age-related norm. The presence of typical complaints of shortness of breath and palpitations, pain behind the sternum during

physical exertion; continuous murmur — by auscultation and pathological shunting greater than 2 mm requires consultation with a cardiac surgeon to decide on further tactics of patient management. If the fistula is less than 2 mm and there are no typical complaints and physical signs, the management tactic is observation, echocardiography — once a year. **Conclusions.** Asymptomatic CAFs of small sizes can be classified as «small structural anomalies of the heart». CAFs may be asymptomatic and not detected during routine instrumental examination, but at the same time they remain a «silent» threat to the patient's life. During echocardiographic screenings, it is imperative to pay attention to the anatomy of the coronary arteries. To prevent complications of CAFs, it is necessary to be monitored by a cardiologist and, at the first typical complaints for them, by a cardiac surgeon. Children with CAFs greater than 2 mm are recommended to limit physical activity (physical education group — preparatory) and exclude classes in sports sections.

Key words: children, coronary artery fistulas, echocardiography.

Інформація про авторів:

Глебова Любов Петрівна — кандидат медичних наук, доцент кафедри педіатрії № 4 Національного медичного університету імені О.О. Богомольця, Київ, Україна. orcid.org/0000-0003-4738-0277. E-mail: lglebova53@gmail.com

Андрущенко Ірина Вікторівна — кандидат медичних наук, провідний науковий співробітник, лікар-педіатр ДУ «Всеукраїнський центр материнства та дитинства НАМН України», Київ, Україна. orcid.org/0000-0001-8199-9941.

Information about the authors:

Glebova Lyubov P. — PhD, Associate Professor of the Department of Pediatrics No 4, Bogomolets National Medical University. orcid.org/0000-0003-4738-0277. E-mail: lglebova53@gmail.com

Andrushchenko Iryna V. — PhD, SI «All-Ukrainian Center of Motherhood and Childhood of the National Academy of Medicine Sciences of Ukraine». orcid.org/0000-0001-8199-9941.

Надійшла до редакції/Received: 23.09.2024

Прийнято до друку/Accepted: 04.10.2024