

大動脈弁病変を伴う心室中隔欠損症の長期予後

牟田 広実, 石井 正浩, 古井 潤, 江上 公康
 姫野和家子, 菅原 洋子, 赤木 禎治, 加藤 裕久
 松石豊次郎

久留米大学小児科

Key words :

心室中隔欠損症, 大動脈弁逆流, 長期予後

Long-term Echocardiographic Follow-up Study of Aortic Regurgitation after Closure of Ventricular Septal Defect

Hiroimi Muta, Masahiro Ishii, Jun Furui, Kimiyasu Egami, Wakako Himeno,
 Yoko Sugahara, Teiji Akagi, Hirohisa Kato, and Toyojiro Matsuiishi

Department of Pediatrics, Kurume University School of Medicine, Japan

Purpose: This study aimed to evaluate changes in aortic regurgitation (AR) after the closure of ventricular septal defect (VSD) with aortic cusp prolapse.

Methods: We reviewed 56 patients with VSD and associated aortic cusp prolapse. The mean follow-up period was 95.1 ± 53.5 months. Twenty-four patients with aortic cusp prolapse underwent closure prior to the development of AR (group A), while the remaining 32 patients had both aortic cusp prolapse and AR at the time of closure (group B). AR was graded according to the level of the jet detected by color-flow Doppler echocardiography.

Results: Among the patients in group A (without AR before closure), 23 patients (96%) did not develop AR. Only one patient (4%) progressed to mild AR. In group B (with AR before closure), AR disappeared in 15 patients (47%) and improved but did not disappear in 10 patients (31%). AR remained unchanged in six patients (19%) in this group, and in one patient (3%) AR progressed from slight to mild.

Conclusions: Not only patients without AR but also those with slight to mild AR showed improvement in the grade of AR with simple closure of the defect. We concluded that simple closure of the defect could prevent the onset and progression of AR.

要 旨

目 的: 本研究の目的は、大動脈弁逆流 (AR) を伴う心室中隔欠損症 (VSD) 患児について、術前・術後遠隔期でのARの変化を観察すること。

方 法: 対象は、VSD + 大動脈弁尖逸脱と診断され、VSD閉鎖術のみを行った56例。術前に弁尖逸脱のみでARを認めなかったものをA群、ARを認めていたものをB群とし、術直前および術後遠隔期のARの有無・重症度を評価した。重症度は、パルスまたはカラードブラ心エコーを用い、大動脈弁逆流ジェットの到達距離が大動脈弁近傍までをslight、僧帽弁前尖の先端部までの場合をmild、前尖を越えるが乳頭筋レベルに達しないものをmoderate、心尖部まで達する場合をsevereとした。

結 果: 術前に弁尖逸脱のみでARを認めなかったものだけでなく、軽度であった場合にもARが消失またはあってもごく軽度になることが多かった。術前より中等度以上あった場合には、全例ARが残存した。

結 語: 術前のARが軽度であればVSD閉鎖術のみでARは改善するものが多く、大動脈弁尖逸脱は認めるがARが認められない時期は、安全に無輸血手術ができるまでは待機してもよいと考えられた。

結 言

心室中隔欠損症 (VSD) のうちKirklin分類のI型VSDは、東洋人に多いといわれている¹⁾。I型VSDに限らずII

型VSDの中にも大動脈弁尖逸脱およびそれに伴う大動脈弁逆流 (AR) を合併するものがある。根治術を施行しない場合、ARの頻度は年々増加し15歳では64%に至るといわれる²⁾。そのためARの進行を防ぐ根治術の時期が

平成14年3月11日受付
 平成14年8月19日受理

別刷請求先: 〒830-0011 福岡県久留米市旭町67
 久留米大学小児科 牟田 広実
 E-mail: QZE05346@nifty.com

問題となり、大動脈病変を認めた時点でできるだけ早い時期の根治術が推奨されている³⁾。しかしVSD閉鎖術のみでの術後のARの変化については、議論のあるところである³⁻⁶⁾。

今回われわれは大動脈病変を伴うVSD患児について、術前および術後遠隔期での大動脈弁逸脱の有無およびARの変化を後方視的に観察し、根治術によるARの変化について検討した。また術後のAR残存に関する要因についても検討した。

方 法

対象は、1980年1月より2001年12月までに、当院においてVSDと診断され、診断時または経過中に大動脈弁逸脱、大動脈弁逆流を認め、VSD閉鎖術(直接閉鎖術またはパッチ閉鎖術)を受けた66例中、1年以上追跡できた56例。術前にARが著明であったため、大動脈弁の修復術や置換術を同時に行った症例は除いた。

56例を、A群(24例): 術前に大動脈弁尖逸脱のみで、ARを認めなかったもの、B群(32例): 術前より大動脈弁逆流を認めていたものの2群に分類し、術直前および術後遠隔期のARの有無および重症度を評価した。ARの重症度は、パルスドプラまたはカラードプラ心エコー(ALOKA SSD-870, Hewlett-Packard SONOS-2000)を用い、大動脈弁逆流ジェットの到達距離が、大動脈弁近傍までにとどまるものをslight、僧帽弁前尖の先端部までの場合をmild、前尖を越えるが乳頭筋レベルに達しないものをmoderate、心尖部まで達する場合をsevereとした(Fig. 1)。VSD径、VSDの位置分類(Kirklin分類を使用)については、術中所見を用いた。統計処理は、t検定またはFisherの直接確率計算法を用い、有意水準を5%とした。

結 果 (Fig. 2)

各群の患児の属性をTable 1に示す。

術中・術後を含め死亡例はなかった。また、再手術例もなかった。また全例大動脈弁の奇形(二尖弁)などもなかった。術中・術後合併症として、1例に心膜切開後症候群を認めたが、ステロイド投与で速やかに改善した。術後のフォローアップ期間は15~231カ月(中央値94.5カ月)であった。

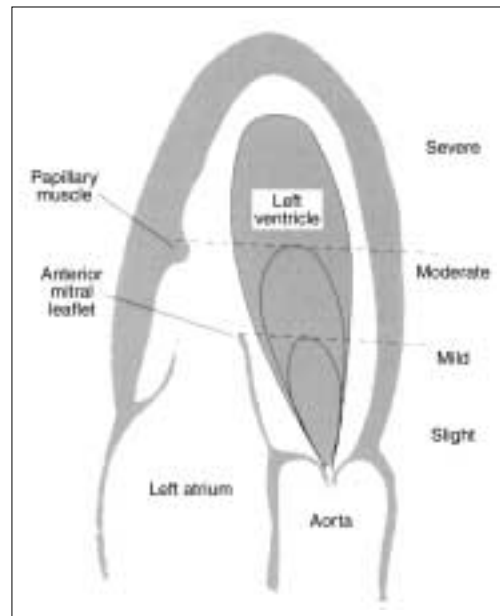


Fig. 1 Classification of severity of aortic regurgitation by color-flow Doppler echocardiography.

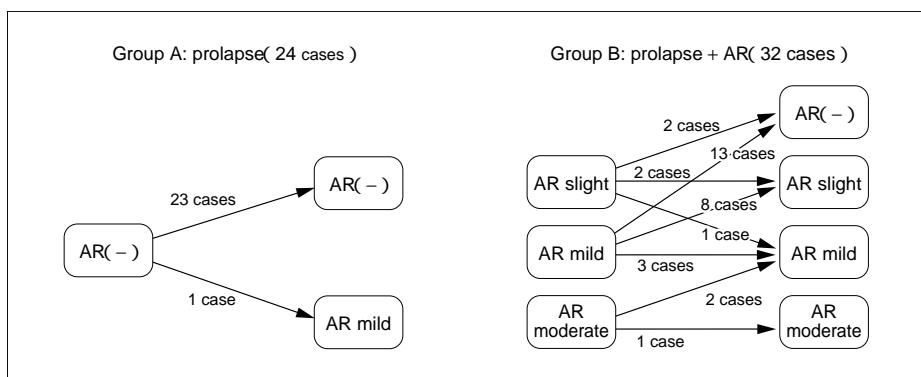


Fig. 2 Changes in aortic regurgitation after closure of ventricular septal defect. Prolapse: prolapse of aortic valve, AR: aortic regurgitation

Table 1A AR – before VSD closure(group A)

No.	Age at operation (month)	Follow-up period (month)	Last follow-up time (month)	VSD diameter (mm)	VSD closure method	Pre-operation Qp/Qs	Location of VSD (Kirklin)	Operative findings	Present AR
1	167	68	235	6	patch	1.6	I	-	none
2	2	46	48	7.5	patch	3.1	I	-	none
3	99	104	203	15	patch	1.6	I	-	none
4	183	83	266	8	patch	1.1	I	-	none
5	107	128	235	5	patch	1.1	I	-	none
6	103	129	232	7	patch	1.0	I	-	none
7	28	229	257	4	patch	1.6	I	-	none
8	196	61	257	12	patch	1.4	I	-	none
9	193	149	44	10	patch	1.7	I	-	none
10	6	126	132	5	direct	1.5	I	-	none
11	116	101	217	15	patch	1.1	I	-	none
12	31	134	165	10	patch	1.1	I	-	none
13	196	29	225	5	patch	1.1	I	-	none
14	79	93	172	5	direct	1.0	II	-	none
15	105	48	153	3	patch	1.2	II	-	none
16	29	15	44	9	patch	1.5	I	-	mild
17	24	231	255	10	patch	1.9	I	-	none
18	213	96	309	14	patch	1.8	I	-	none
19	92	93	185	10	patch	1.5	I	-	none
20	29	61	90	7	patch	1.6	I	-	none
21	125	89	214	12	patch	1.5	I	-	none
22	90	105	195	15	patch	2.3	I	-	none
23	159	109	268	5	direct	1.1	II	-	none
24	150	67	217	12	patch	1.0	I	RCC adhesion	none

AR: aortic regurgitation, VSD: ventricular septal defect, Qp/Qs: pulmonary to systemic flow ratio, RCC: right coronary cusp

1) A群

術前ARを認めていなかったこの群では、術後も24例中23例(96%)がARは認めておらず、残りの1例(4%)に無症状で、聴診上有意な雑音を聴取しない mild なARが出現していた。

2) B群

術前ARが軽度(slight-mild)であった29例中25例(86%)は、術後はARを全く認めないか、slightまで改善していた。残り4例中3例はmildのまま変化なく、1例のみ slight mildへ進行していたが、臨床には無症状で経過観察のみを行っている。術前にARがmoderateであった3例は、全例mild以上のARが残存しているが、悪化は認めていない。

次に、術前にARがmild-moderateあった27例について、術後にARがslight以下まで改善した例とmild以上残存した例に分け、手術時年齢、術前ARの重症度、閉鎖術式、肺体血流比(Qp/Qs)、VSD径、VSDの位置の各項目について比較検討した(Table 2)。ARがmild以上残存

した例は、術前のVSD径が大きい方が有意に多かった($p < 0.001$)。また、術前のARがmoderate以上であるほど、mild以上のARが残存していた($p = 0.007$)。手術時年齢、閉鎖術式、Qp/Qs、VSDの位置は、AR残存の因子とはいえなかった。

考 察

今回われわれは後方視的にVSD術後のARの変化について検討した。術前に弁尖逸脱のみでARを認めなかったものだけでなく、ARが軽度であった場合もVSD閉鎖術のみでARは消失するものが多かった。このことから、ARが軽度であるときは、VSDを閉鎖するだけでARは悪化することはないと考えられた。このことはKomaiら、寺町ら、梅林らの報告と同様である^{3,5,6)}。しかしTomitaらは、術前に大動脈弁尖逸脱もARも認めなかったVSD児の26%に術後軽度のARを認め、VSD閉鎖術が必ずしもARの進行を防ぐわけではないとしている⁴⁾。またSimらの検討では術前にARも大動脈弁の変形もな

Table 1B AR(+) before VSD closure(group B)

No.	Age at operation (month)	Follow-up period (month)	Last follow-up time (month)	VSD diameter (mm)	VSD closure method	Pre-operation Qp/Qs	Location of VSD (Kirclin)	Operative findings	AR before operation	Present AR
1	153	76	229	11	patch	1.2	I	-	mild	mild
2	75	189	264	7	patch	1.0	I	RCC adhesion	mild	slight
3	178	62	240	5	direct	1.0	I	-	mild	none
4	116	132	248	8	patch	2.0	I	RCC adhesion	mild	none
5	43	131	174	8	patch	1.6	I	RCC adhesion	mild	slight
6	169	21	190	15	patch	1.2	I	-	mild	slight
7	115	69	184	3	direct	1.3	II	-	mild	slight
8	65	122	187	10	patch	1.3	I	-	mild	slight
9	43	168	211	5	patch	1.2	I	-	mild	slight
10	18	139	157	8	patch	1.3	I	-	mild	none
11	26	126	152	8	patch	1.0	II	-	mild	none
12	87	127	214	7	patch	1.3	I	-	mild	none
13	29	50	79	4	patch	2.1	I	-	slight	none
14	98	25	123	13	patch	1.2	I	-	slight	slight
15	30	42	72	5	patch	1.2	I	-	mild	none
16	61	227	288	15	patch	2.0	II	-	moderate	moderate
17	94	48	142	6	direct	1.1	II	-	mild	none
18	240	32	372	10	patch	1.3	I	-	mild	none
19	38	123	161	12	patch	2.5	I	-	mild	none
20	164	13	177	15	patch	1.0	I	RCC hypertrophy	moderate	mild
21	66	110	176	8	patch	1.1	I	-	mild	none
22	132	97	229	8	patch	1.5	I	-	mild	none
23	247	80	327	10	patch	1.1	I	-	mild	none
24	147	15	162	28	patch	2.2	I	Aneurysm of sinus of Valsalva	mild	mild
25	177	67	244	7	patch	1.5	II	-	slight	mild
26	75	48	123	8	patch	1.3	I	-	mild	slight
27	102	128	230	10	patch	1.5	I	-	mild	mild
28	150	149	299	15	patch	1.4	II	RCC hypertrophy	moderate	mild
29	54	133	187	8	patch	1.4	I	RCC hypertrophy	mild	none
30	92	19	111	10	patch	1.4	I	-	mild	slight
31	132	115	247	17	patch	1.6	I + II	-	slight	none
32	147	48	195	6	patch	1.1	I	-	slight	slight

AR: aortic regurgitation, VSD: ventricular septal defect, Qp/Qs: pulmonary to systemic flow ratio, RCC: right coronary cusp

かった群では術後もARは認めなかったが、術前にARは認めないが大動脈弁の変形があった9例中5例(56%)にARが出現し、うち1例にはARがないにもかかわらず中等度の逸脱のため、大動脈弁修復術を行っている⁷⁾。これらの結果の違いについて、われわれの症例(平均8.8歳)に比べTomitaら(平均4.6歳)、Simら(平均5.8歳)の症例では、手術時年齢が低いことが影響しているかもしれない。平均フォローアップ期間、VSD径は差がな

かった。われわれの症例の残存ARも無症状ではあるが、軽度のARでも感染性心内膜炎の危険因子となるため⁸⁾、ARを残さないためにはエコー上大動脈弁尖逸脱を認めた段階での速やかな根治術が推奨される。また術後ARが残存した場合にも、加齢の影響を受けてのARの変化について、さらなる長期フォローが必要と考えられた。

次に、術後にmild以上のARが残存する因子について

Table 2 Factors in residual aortic regurgitation

	Improved(n=21)	Residual(n=6)	P-value
Age at operation (month)	95.4±65.8	129.5±39.8	p=0.242
AR severity at pre-operation (mild:moderate)	21:0	3:3	p=0.007
Methods of VSD closure (direct:patch)	3:18	0:6	p=0.455
Qp/Qs	1.3±0.4	1.6±0.5	p=0.226
Diameter of VSD(mm)	8.0±2.6	15.5±6.6	p<0.001
Location of VSD(I : II)	18:3	5:1	p=0.659

AR: aortic regurgitation, VSD: ventricular septal defect, Qp/Qs: pulmonary to systemic flow ratio

見ていくと、術前のARがmoderate以上である、VSD径が大きい、の2項目があげられた。臨床上カロードブラでのVSD径は右冠尖の逸脱が重症であるほど小さく見えるが、術中のVSD径の計測であるため、大きいほど右冠尖の逸脱が高度になるためと考えられた。術後ARが残存する要因として、KomaiらはARの診断から根治術までの期間が長く、全例3年以上であった例としている³⁾。この点からも、大動脈弁尖逸脱を認めた後も待機手術とする場合は注意深く、また頻回の観察を行うべきであり、軽度のARでも認め次第すぐに根治術の適応となると考えられる。

結 語

術後のARを予防するためには、大動脈弁尖逸脱を認めた時点で速やかに根治術を行うことが必要と考えられた。しかし、術前のARが軽度であればVSD閉鎖術のみでARは改善するものが多く、弁尖逸脱は認めるがARが認められない時期は、安全に無輸血手術ができるまでは待機してもよいと考えられた。

本論文の要旨は、第37回日本小児循環器学会総会(静岡)において報告した。

【参考文献】

- 1) Jeda M, Fujimoto T, Becker AE: The infundibular septum in normal hearts and in hearts with isolated ventricular septal defect: A comparison between Japanese and Dutch hearts. *Jpn Heart J* 1986; 27: 635-643
- 2) Lun K, Li H, Leung MP, et al: Analysis of indications for surgical closure of subarterial ventricular septal defect without associated aortic cusp prolapse and aortic regurgitation. *Am J Cardiol* 2001; 87: 1266-1270
- 3) Komai H, Naito Y, Fujiwara K, et al: Surgical strategy for doubly committed subarterial ventricular septal defect with aortic cusp prolapse. *Ann Thorac Surg* 1997; 64: 1146-1149
- 4) Tomita H, Arakaki Y, Ono Y, et al: Evolution of aortic regurgitation following simple patch closure of doubly committed subarterial ventricular septal defect. *Am J Cardiol* 2000; 86: 540-542
- 5) 寺町紳二, 山元康敏, 小澤誠一郎, ほか: Kirklín I型心室中隔欠損症根治術前後の大動脈弁逆流についての検討. *小児科臨床* 1998; 51: 253-257
- 6) 梅林雄介, 湯田敏行, 福田 茂, ほか: 心室中隔欠損症に合併する大動脈弁閉鎖不全の外科治療の検討. *胸部外科* 1993; 46: 1013-1016
- 7) Sim EK, Grignani RT, Wong ML, et al: Outcome of surgical closure of doubly committed subarterial ventricular septal defect. *Ann Thorac Surg* 1999; 67: 736-738
- 8) Kaplan EL, Shulman ST: Endocarditis, in Adams FH, Emmnoulides GC (eds): *Heart disease in infants, children, and adolescents*. Baltimore, William & Wilkins, 1983, pp565-576