

Anévrysme coronaire associé à une fistule artérielle : deux cas anatomiquement similaires malgré une présentation clinique différente

Coronary artery aneurysm associated with fistula : two anatomically similar cases with different clinical presentation

N. Ngo Mandag, B. Sina et P. Decoodt

Service de Cardiologie, C.H.U. Brugmann

RESUME

Les fistules artérielles coronaires sont des anomalies rares et leur association à un anévrysme coronaire est encore plus rare.

Nous rapportons deux cas illustratifs par leur présentation clinique différente. Le diagnostic dans le premier cas est fait suite à une découverte fortuite de souffle cardiaque ; par contre, dans le deuxième cas, la mise en évidence de la fistule artérielle coronaire fait suite à un bilan de douleurs thoraciques atypiques. Dans les deux cas, il s'agit de l'artère coronaire droite fistulisant dans l'oreillette droite.

Rev Med Brux 2010 ; 31 : 177-80

ABSTRACT

Coronary artery fistulas are rare anomalies and their association with a coronary aneurysm even more infrequent. We report two cases which are illustrative because of their different clinical presentations. In the first case the diagnosis was made after discovering fortuitously a heart murmur. In contrast in the second case the coronary artery fistula was demonstrated during a check-up for thoracic pain. In both cases the right coronary artery gave a fistulous communication to the right atrium.

Rev Med Brux 2010 ; 31 : 177-80

Key words : coronary artery, fistula, aneurysm

INTRODUCTION

Les fistules artérielles coronaires sont des anomalies rares avec une incidence représentant 0.08 % à 0,4 % des cas de cardiopathies congénitales^{1,2}. L'association avec un anévrysme de la même artère coronaire fistulisant est une entité encore plus rare.

CAS CLINIQUE 1

Une patiente de 35 ans d'origine algérienne, nous est adressée en raison de la découverte fortuite d'un souffle cardiaque. Elle est asymptomatique, ne présente pas d'antécédents et ne prend pas de traitement à domicile. L'examen clinique confirme la présence d'un souffle continu 3-4/6 parasternal gauche et apical. La biologie et l'électrocardiogramme sont normaux. La radiographie du thorax montre un bombement de la

face supéro-externe du bord cardiaque droit faisant suspecter une dilatation de l'oreillette droite. L'échocardiographie transthoracique montre une cavité prenant naissance dans la racine aortique située près de l'oreillette droite. L'échocardiographie transœsophagienne montre également une coronaire droite dilatée partant de l'aorte (figure 1). Elle révèle aussi un abouchement de cette coronaire droite anévrysmale dans une cavité bilobée située en avant du septum interauriculaire et derrière l'aorte et faisant saillie dans l'oreillette droite. Le lobe le plus antérieur de cette cavité se fistulise dans l'oreillette droite (figure 2). Un cathétérisme cardiaque droit réalisé dans le pays d'origine de la patiente avait montré des pressions normales. Une mesure de *shunt* n'a cependant pas été rapportée concernant cette investigation qui n'a pas été répétée dans notre institution. La coronarographie confirme la présence d'un anévrysme géant naissant du segment initial de la coronaire droite. Cette formation

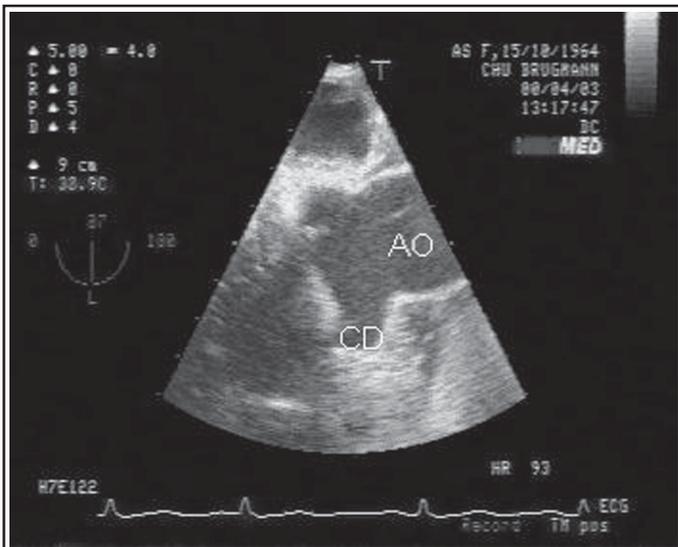


Figure 1 : Echographie transœsophagienne du 1^{er} cas clinique montrant l'aorte (AO) d'où part la coronaire droite (CD) dilatée.

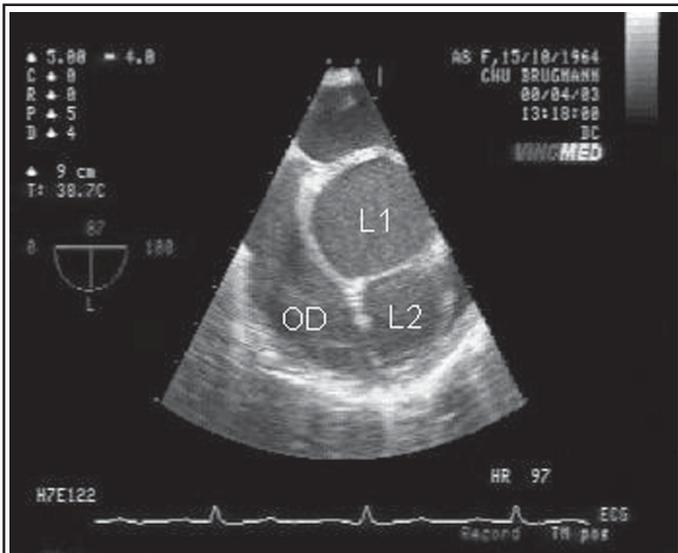


Figure 2 : Echographie transœsophagienne du 1^{er} cas clinique révélant la cavité bilobée [lobe 1 (L1) et lobe 2 (L2)] se drainant dans l'oreillette droite (OD).

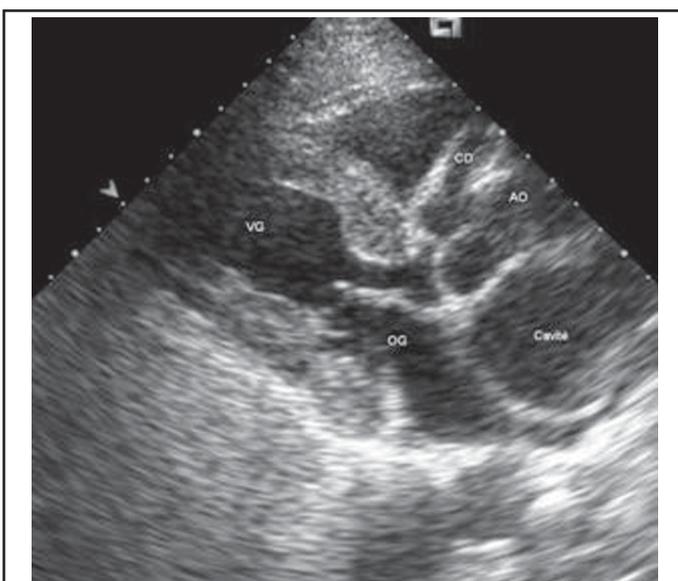


Figure 3 : Echographie transthoracique du 2^{ème} cas clinique montrant une cavité derrière l'oreillette gauche (OG) devant laquelle se trouve l'aorte (AO) et le départ de la coronaire droite (CD) qui apparaît dilatée.

anévrismale se fistulise dans l'oreillette droite. L'indication opératoire repose sur les risques de rupture, d'endocardite et de thrombose. L'intervention confirme la fistule coronaro-cardiaque complexe. Le segment juxta-ostial de la coronaire droite est dilaté et donne naissance à deux cavités successives, se fistulisant dans le limbe de la fosse ovale pour la première, et par un orifice de 3 mm dans l'oreillette droite pour la seconde. La patiente bénéficie d'un traitement chirurgical de la fistule par interruption de celle-ci et mise à place d'un *patch* péricardique à son origine. Ce *patch* permet de préserver la continuité de la coronaire droite. La patiente retournera à domicile au 10^{ème} jour postopératoire sans aucune complication.

CAS CLINIQUE 2

Un patient de 49 ans nous est adressé pour des douleurs thoraciques atypiques non liées à l'effort avec comme facteurs de risque cardiovasculaire une hypertension artérielle et une hypercholestérolémie. Son traitement à domicile comporte de l'amlodipine 5 mg par jour et du bisoprolol 5 mg par jour. L'examen clinique est normal et en particulier l'auscultation cardiaque. L'électrocardiogramme au repos, la biologie ainsi que la radiographie du thorax sont normaux. L'échocardiographie transthoracique montre une structure échogène arrondie refoulant l'oreillette gauche et la coronaire droite apparaît dilatée à son origine (figure 3). L'échocardiographie par voie transœsophagienne confirme la dilatation de l'origine de la coronaire droite (figure 4). Une cavité arrondie, bilobée, à paroi fine, située derrière l'aorte et se drainant dans l'oreillette droite est mise en évidence (figure 5). Le scanner coronaire permet de confirmer une fistule coronaro-camérale avec un trajet proximal de l'artère coronaire droite dilaté (± 10 mm), la coronaire droite distale étant normale. Le trajet circonvolué de la fistule aboutit dans un premier anévrysme d'environ 5 cm de diamètre puis un second abouché au toit de l'oreillette droite (figure 6). Dans ce cas également, la décision opératoire a été essentiellement basée sur le risque de complications. Le patient bénéficiera d'un traitement chirurgical de la fistule coronaro-camérale. L'oreillette droite est ouverte en premier avec mise en évidence de l'abouchement de la fistule qui est alors obturé. Ensuite sont pratiqués la mise à plat de l'anévrysme rétro-atrial sur le trajet de la fistule, la ligature proximale de la coronaire droite normale immédiatement après la fistule, et une anastomose termino-latérale entre la coronaire droite et le pédicule mammaire interne droit. Le patient sortira au 9^{ème} jour postopératoire sans complication.

DISCUSSION

Une fistule artérielle coronaire est une communication anormale entre une artère coronaire et d'autres structures cardiaques telles que l'oreillette droite, le ventricule droit, l'oreillette gauche, le ventricule gauche, la veine cave supérieure, le sinus coronaire, l'artère pulmonaire, les veines pulmonaires^{3,4}. Cette anomalie peut être congénitale ou encore iatrogène

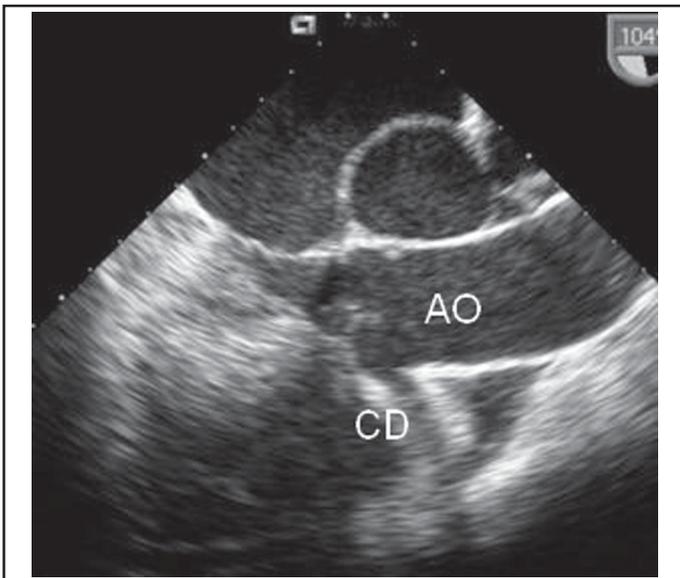


Figure 4 : Echographie transœsophagienne du 2^{ème} cas clinique montrant le départ de la coronaire droite (CD) de l'aorte (AO).

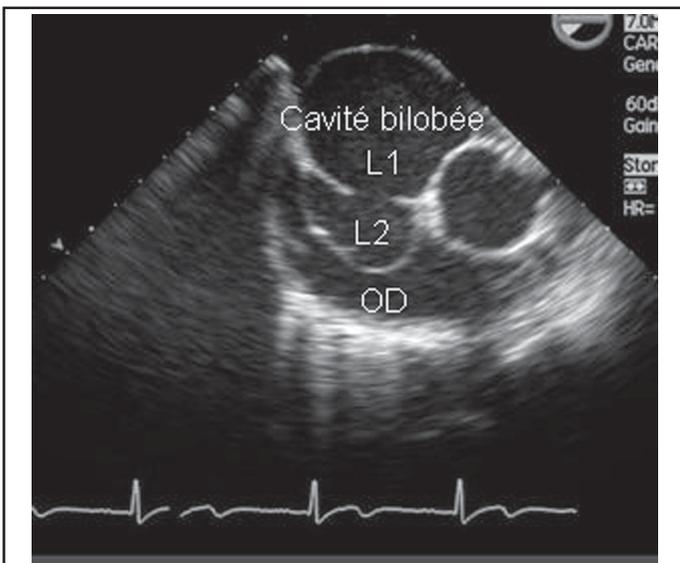


Figure 5 : Echographie transœsophagienne du 2^{ème} cas clinique révélant également la cavité bilobée [lobe 1 (L1) et lobe 2 (L2)] se drainant dans l'oreillette droite (OD). L'aspect bilobé est très semblable à celui du premier cas clinique (cf. figure 2).

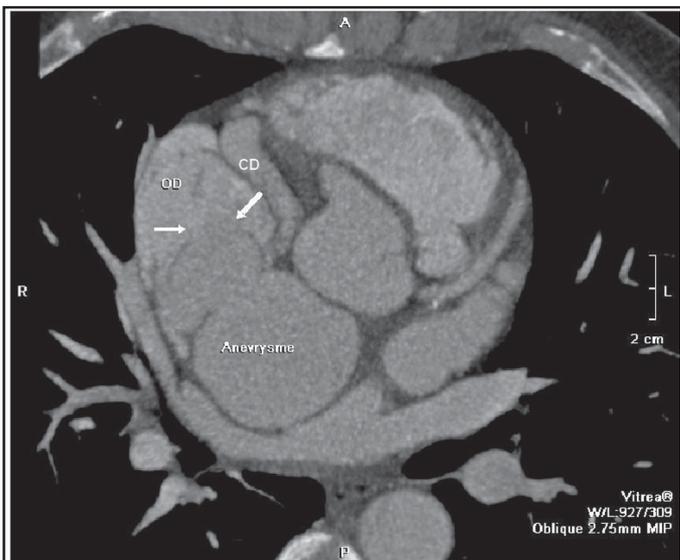


Figure 6 : CT-scanner coronaire du 2^{ème} cas clinique montrant la coronaire droite (CD) dilatée dont le trajet aboutit à une cavité anévrysmale bilobée qui se draine elle-même dans l'oreillette droite (OD).

(traumatisme, procédures cardiaques invasives). 55 % des fistules partent de l'artère coronaire droite avec 90 % de drainage dans les cavités cardiaques droites^{2,3}. Le premier cas a été publié en 1706 par R. Vieussens dans "Nouvelles Découvertes sur le Cœur", Paris. Dans les cardiopathies congénitales, l'incidence varie entre 0,08 % et 0,4 % des cas^{1,2}. On trouve une fistule artérielle coronaire chez 0,2 à 1,5 % des patients évalués en angiographie coronaire⁵. Dans les deux cas décrits ici, il s'agit de fistules coronaires droites s'abouchant toutes deux dans l'oreillette droite. La découverte est généralement fortuite comme le décrit Zanchin dans une analyse de 14 patients présentant une fistule coronaire sur une série de 5.384 coronarographies⁶. Sinon, les symptômes généralement rencontrés sont la dyspnée ou l'angor. Ces symptômes dépendent d'une part du lieu d'abouchement de la fistule (*shunt* gauche-droit) et d'autre part de la présence d'un vol coronaire entraînant une ischémie en aval de la fistule par réduction du flux coronaire. Dans le premier de nos cas, la présentation clinique est la découverte fortuite d'un souffle continu et, dans le deuxième cas, la présence de douleurs thoraciques atypiques. La coronarographie est l'examen de référence pour la détection d'une fistule artérielle coronaire⁸. Cependant, l'évaluation du trajet de la fistule est incomplète par cette approche d'où l'utilisation d'autres techniques complémentaires telles l'échocardiographie transœsophagienne et les nouvelles imageries de CTscanner spiralé ou encore de résonance magnétique nucléaire^{7,8}. Les fistules hémodynamiquement non significatives ne nécessitent pas de traitement. Le traitement chirurgical se fait soit par simple ligature, soit par résection en bloc de la fistule puis réalisation d'une revascularisation chirurgicale⁹.

Un anévrysme d'une artère coronaire est une dilatation localisée dépassant de plus de 50 % le diamètre normal de celle-ci. L'incidence des anévrysmes coronaires varie entre 0,3 % et 5 %¹⁰. Parmi les causes congénitales, relevons surtout la polykystose rénale et le syndrome d'Ehlers-Danlos. Mais l'étiologie la plus communément rencontrée est l'artériosclérose ; on peut citer également : les traumatismes, l'artérite de Kawasaki (surtout chez les enfants), les artérites syphilitiques ou encore de Takayasu^{11,12}. Plus récemment, un nombre croissant de publications décrivent des anévrysmes secondaires à la pose d'un *stent* endocoronaire. Les symptômes, s'ils sont présents, sont liés le plus souvent à une ischémie myocardique. Les complications sont liées à une thrombose, une embolisation distale, une endocardite ou à une rupture de l'anévrysme. Dans les deux cas cliniques que nous décrivons, il s'agit d'anévrysmes proximaux de la coronaire droite sans histoire de traumatisme thoracique ni de pathologie inflammatoire d'où l'hypothèse d'une étiologie congénitale ou alors d'une étiologie liée à la présence de la fistule.

En effet, l'association d'un anévrysme avec une fistule artérielle coronaire a fait l'objet d'une revue de la littérature extensive en 1999¹³. Auparavant, Daoud

*et al.*¹¹ ont rapporté, déjà en 1963, une série chirurgicale de 16 cas d'association avec une fistule coronaire dans une série de 89 anévrysmes coronaires. D'autres auteurs rapportent que les anévrysmes coronaires apparaissent dans 19 % des cas de fistule coronaire¹⁴. La prévalence exacte de cette association dans la population générale n'est cependant pas connue. L'âge moyen est de 59,2 ans (18-87 ans) avec une prédominance féminine¹⁵. Cette association anévrysme-fistule s'expliquerait par un mécanisme de haut débit. Un tiers des patients sont asymptomatiques lors de la découverte de l'affection suite à la constatation d'un souffle cardiaque (comme chez la patiente du premier cas clinique) et/ou une anomalie à la radiographie du thorax. Les symptômes rencontrés sont ceux des deux pathologies : angor, dyspnée. Le mécanisme physiopathologique exact n'est pas connu. On évoque une étiologie embryologique avec un amincissement de la média et remplacement du muscle lisse par du tissu fibreux comme l'indiquerait l'examen anatomo-pathologique des fistules et anévrysmes coronaires. Cependant, des études génétiques, anatomo-pathologiques et moléculaires sont attendues dans l'avenir.

CONCLUSION

Nous rapportons deux cas similaires de fistules coronaires droites associées à un anévrysme. L'association de ces deux anomalies est en elle-même rare. L'intérêt des deux cas réside dans la similitude des anomalies anatomiques associées à des présentations cliniques très différentes, à savoir d'une part, un souffle continu de découverte fortuite et d'autre part, des douleurs thoraciques.

BIBLIOGRAPHIE

- Gillebert C, Van Hoof R, Van de Werf F, Piessens J, De Geest H : Coronary artery fistula in an adult population. *Eur Heart J* 1986 ; 7 : 437-43
- Said SA, van der Werf T : Dutch survey of coronary artery fistulas in adults : Congenital solitary fistulas. *Int J Cardiol* 2006 ; 106 : 323-32
- Fernandez ED, Kadivar H, Hallman GL, Reul GJ, Ott DA, Cooley DA : Congenital malformations of coronary arteries : the Texas Heart Institute experience. *Ann Thorac Surg* 1992 ; 54 : 732-40

- Levin DC, Fellows KE, Abrahms HL : Hemodynamically significant primary anomalies of coronary arteries. *Circulation* 1978 ; 25 : 34
- Abdelmoneim SS, Mookadam F, Moustafa S *et al.* : Coronary artery fistula : single-center experience spanning 17 years. *J Interv Cardiol* 2007 ; 20 : 265-74
- Zanchin L, Salzmann C, Meier B : Koronarfilsteln beim Erwachsenen. *Schweiz Med Wochenschr* 1996 ; 126 : 299-307
- Utsunomiya D, Nishiharu T, Urata J *et al.* : Visualisation of coronary arterial malformation depicted at multi-slice CT angiography. *Int J Cardiovasc Imaging* 2006 ; 22 : 547-51
- de Doelder MS, Hillers JA : Combination of imaging modalities in a coronary artery fistula. *Neth Heart J* 2008 ; 16 : 313-4
- Wauthy P, Demanet H, Deuvaert FE : Surgical treatment of coronary artery fistula with aneurysm. *Acta Chir Belg* 2003 ; 03 : 532-3
- Pahlavan PS, Niroomand F : Coronary artery aneurysm : a review. *Clin Cardiol* 2006 ; 29 : 439-43
- Daoud AS, Pankin D, Tulgan H, Florentin RA : Aneurysm of the coronary artery : report of ten cases and review of literature. *Am J Cardiol* 1963 ; 26 : 228-37
- Nichols L, Lagana S, Parwani A : Coronary artery aneurysm : a review and hypothesis regarding etiology. *Arch Pathol Lab Med* 2008 ; 132 : 823-8
- Hirose H, Amaro A, Yoshida S *et al.* : Coronary artery aneurysm associated with fistula in adults : collective review and a case report. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 1999 ; 5 : 258-64
- Urrutia-S CO, Falaschi G, Ott DA, Cooley DA : Surgical management of 56 patients with congenital coronary artery fistulas. *Ann thorac Surg* 1983 ; 35 : 300-7
- Said SA, Schroeder-Tanka JM, Mulder BJ : Female gender and the risk of rupture of congenital aneurysmal fistula in adults. *Congenit Heart Dis* 2008 ; 3 : 63-8

Correspondance et tirés à part :

N. NGO MANDAG
C.H.U. Brugmann
Service de Cardiologie
Place A. Van Gehuchten 4
1020 Bruxelles
E-mail : nathaliemandag@yahoo.fr

Travail reçu le 13 janvier 2010 ; accepté dans sa version définitive le 30 mars 2010.