

Otrzymano: 15.10.2017
Zaakceptowano: 14.02.2018
Opublikowano: 30.03.2018

Nieprawidłowe ujście prawej tętnicy wieńcowej od pnia tętnicy płucnej leczone chirurgicznie u 6-tygodniowego niemowlęcia. Opis przypadku i przegląd piśmiennictwa

Anomalous origin of the right coronary artery from the main pulmonary artery treated surgically in a 6-week-old infant. A case report and review of the literature

Krzysztof Grabowski¹, Maciej Aleksander Karolczak¹,
Ewa Zacharska-Kokot², Wojciech Mądry¹, Jacek Pająk¹

¹ *Klinika Kardiologii i Chirurgii Dzieci, Warszawski Uniwersytet Medyczny, Warszawa, Polska*

² *Klinika Kardiologii, Instytut Matki i Dziecka w Warszawie, Warszawa, Polska*

Adres do korespondencji: Dr n. med. Jacek Pająk, Klinika Kardiologii i Chirurgii Dzieci, Warszawski Uniwersytet Medyczny, ul. Żwirki i Wigury 63A, 02-091 Warszawa, tel. +48 22 317 98 81, e-mail: jacekpajak@poczta.onet.pl

DOI: 10.15557/JoU.2018.0011

Słowa kluczowe

nieprawidłowe ujście
prawej tętnicy
wieńcowej od pnia
tętnicy płucnej,
anomalia tętnic
wieńcowych,
echokardiograficzne
rozpoznanie,
noworodek,
CorMatrix

Keywords

anomalous origin
of the right coronary
artery from the main
pulmonary artery,
coronary artery
anomaly,
echocardiographic
diagnosis,
infant,
CorMatrix

Abstract

Background: In the present paper, the authors describe a case of a rare congenital defect – anomalous origin of the right coronary artery from the main pulmonary artery diagnosed in a 5-week-old infant who was deemed eligible for surgical treatment based solely on echocardiography. Such anatomical abnormalities of the coronary arteries are subtle and thus extremely difficult to visualize, especially in patients in whom permanent extensive damage of the cardiac muscle has not yet occurred. For this reason, the diagnosis is usually established when the disease is highly advanced, oftentimes only postmortem. In this paper, the authors present early echocardiographic evaluation, successful surgical treatment and post-operative echocardiographic examination. **Case presentation:** Fetal echocardiographic examinations demonstrated single vascular anomalies. The suspicion was verified after birth. Other congenital defects, including genetic defects, were also investigated. In the 5th week of life, cardiac ECHO showed abnormal origin of the right coronary artery from the trunk of the pulmonary artery. The child was deemed eligible for surgical treatment of the defect. The surgical translocation of the ostium of the right coronary artery to the aorta was done with success, and the child was discharged on the 14th day of hospitalization. **Conclusion:** The present case report demonstrates that careful examination of the child with precise echocardiographic examination makes it possible to establish an early diagnosis of this rare defect. This discrete defect can be treated early, before the symptoms, often connected with irreversible changes in the myocardium, appear.

Wstęp

Anomalie tętnic wieńcowych, w szczególności nieprawidłowe odejścia głównych pni wieńcowych od pnia płucnego, należą do najrzadszych, ale też najbardziej niebezpiecznych wrodzonych wad serca – wiążą się z ryzykiem wystąpienia ciężkiego niedokrwienia, a nawet zawału mięśnia serca, groźnych arytmii, przewlekłej niewydolności krążenia i nagłych zgonów⁽¹⁾. Jednocześnie nieprawidłowości anatomiczne tętnic wieńcowych są subtelne, a przez to niezwykle trudne do wizualizacji, szczególnie u pacjentów, u których nie doszło jeszcze do trwałego, rozległego uszkodzenia mięśnia serca. Z tego względu rozpoznanie jest zazwyczaj stawiane w okresie znacznego zaawansowania choroby, nierzadko dopiero pośmiertnie^(1,2).

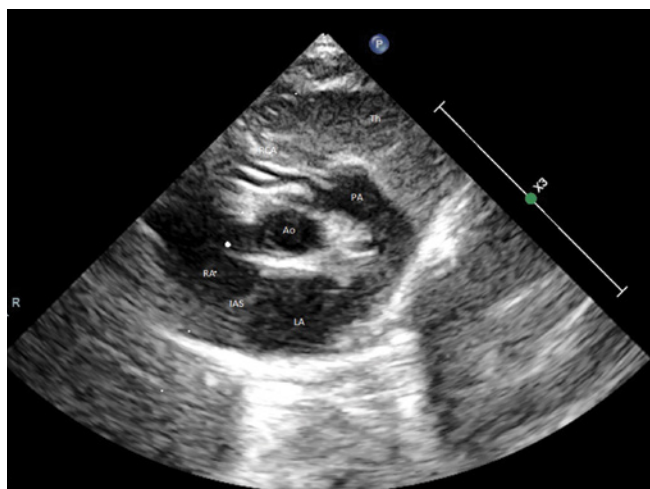
W niniejszej pracy autorzy przedstawiają przypadek nieprawidłowego odejścia prawej tętnicy wieńcowej od pnia tętnicy płucnej (*anomalous origin of the right coronary artery from the pulmonary artery, ARCAPA*) rozpoznanego u 5-tygodniowego niemowlęcia, zakwalifikowanego do leczenia operacyjnego wyłącznie na podstawie badania echokardiograficznego.

Opis przypadku

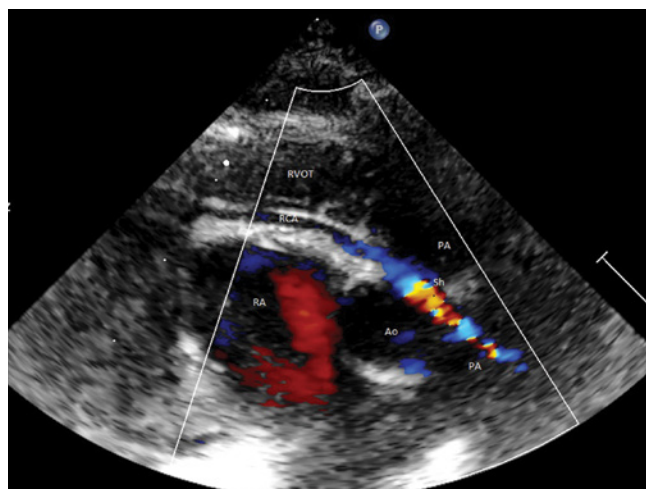
Dziecko płci żeńskiej z CII, PII, urodzone o czasie (39 Hbd z masą ciała 2830 g), ocenione na 10 pkt Apgar. W trakcie ponawianych ultrasonograficznych wewnątrzmacicznych badań prenatalnych (12, 20, 24, 26 i 28 Hbd) rozpoznano u płodu nieprawidłowości układu naczyniowego pod postacią dwunaczyniowej pępowiny, agenezji przewodu żylnego, błędzącej prawej tętnicy podobojczykowej (*aberrant right subclavian artery, ARSA*), a także

wielotorbielowatość nerki prawej. Echokardiografia wykonana w drugiej dobie życia wykazała ponadto obecność otworu owalnego (*foramen ovale, FO*) oraz niedomykalność I/II stopnia zastawki mitralnej. Opisane powyżej nieprawidłowości naczyniowe i nefrologiczne oraz widoczne cechy dysmorfii twarzy, takie jak krótka szyja, wyrosła przeduszna, niewielki wytrzeszcz gałek ocznych (badanie okulistyczne wykazało przymglenie rogówki w oku lewym fragmentarycznie z wrastającym naczyniem), były przyczyną poszukiwania podłoża genetycznego. Konsultacja genetyczna wykazała prawidłowy kariotyp. Ponadto u matki stwierdzono obecność przeciwciał anti-KELL, jednak bez zaburzeń hematologicznych u dziecka. Noworodka objęto opieką specjalistyczną w trybie ambulatoryjnym; obserwowany był jego prawidłowy rozwój bez niepokojących objawów ze strony układu krążenia. Ze względu na całokształt obrazu klinicznego i stwierdzenie w badaniu wyjściowym niedomykalności zastawki mitralnej bez uchwytnej podłoża morfologicznego zaplanowano wczesną – w 5. tygodniu życia – kontrolę echokardiograficzną. W badaniu tym po raz pierwszy stwierdzono nieprawidłowe odejście prawej tętnicy wieńcowej od pnia płucnego (*ARCAPA*) (ryc. 1 i 2). Badanie wykazało intensywny wypływ z poszerzonej prawej tętnicy wieńcowej do pnia płucnego. Uwidoczniono także nasilony przepływ odaortalny w lewej tętnicy wieńcowej i jej odgałęzieniach. Nie stwierdzono natomiast upośledzenia kurczliwości żadnego z obszarów mięśnia komór, a także nie zarejestrowano uprzednio obserwowanej niedomykalności zastawki mitralnej.

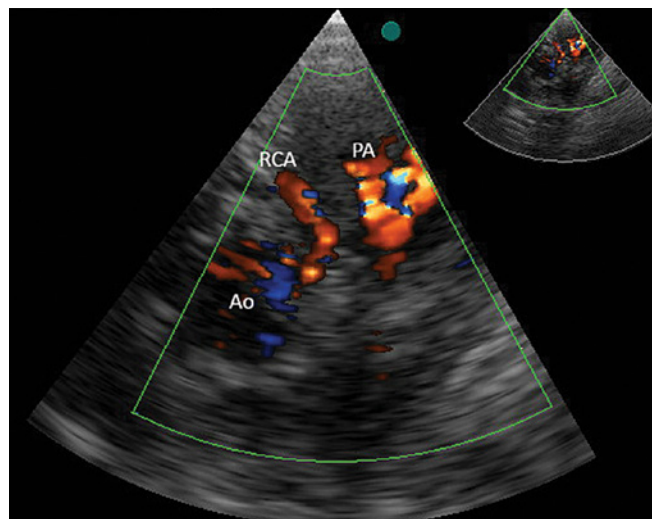
Niemowlę skierowano do Kliniki Kardiologii w celu przeprowadzenia operacji korekcyjnej. Po analizie dotychczas wykonanych badań i weryfikacji rozpoznania przez zespół Kliniki dziecko zostało zakwalifikowane do



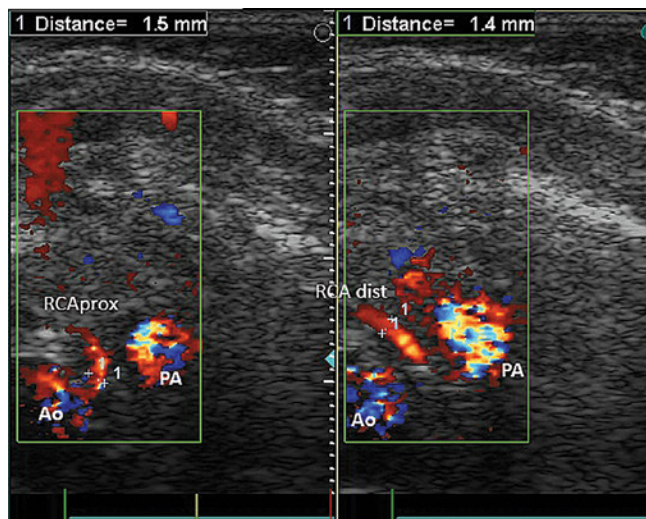
Ryc. 1. Odejście prawej tętnicy wieńcowej od tętnicy płucnej uwidocznione w prezentacji ECHO 2D, w zmodyfikowanej projekcji naczyń przymostkowej poprzecznej. PA – tętnica płucna, Ao – poprzeczny przekrój przez początkowy odcinek aorty wstępującej, RCA – prawa tętnica wieńcowa, LA – lewy przedsionek, RA – prawy przedsionek, Th – grasica, IAS – przegroda międzyprzedsionkowa



Ryc. 2. Badanie ECHO przedoperacyjne. Zmodyfikowana projekcja przymostkowa naczyń poprzeczna. Widoczny dopływ z prawej tętnicy wieńcowej do tętnicy płucnej. Ao – poprzeczny przekrój aorty wstępującej, PA – pień tętnicy płucnej, RCA – prawa tętnica wieńcowa, RVOT – droga wypływu z prawej komory, RA – prawy przedsionek, Sh – przeciek RCA-PA



Ryc. 3. Nasierdziowe badanie śródoperacyjne obrazujące przepływ w przeszczepionej do opuszki aorty prawej tętnicy wieńcowej. Obecnie przepływ, który jest skierowany ku górze, jest kodowany jednorodnym kolorem czerwonym (przepływ laminarny). PA – fala zwrotna płucna wypełniająca drogę odpływu z prawej komory, Ao – przekrój poprzeczny przez opuszkę aorty, RCA – prawa tętnica wieńcowa



Ryc. 4. ECHO pooperacyjne. Początkowy odcinek prawej tętnicy wieńcowej w badaniu pooperacyjnym (18. doba po zabiegu). W celu uzyskania odpowiedniej zdolności rozdzielczej zastosowano głowicę liniową, a także skalę dopplera kolorowego umożliwiającą odwzorowanie niskich prędkości przepływu (0,15 m/s). Ze względu na łukowaty przebieg tętnicy wieńcowej uniemożliwiający uchwycenie całego początkowego odcinka na jednym obrazie zaprezentowano dwie klatki obrazowe wizualizujące kolejne odcinki naczynia. Uwidoczniono jednorodny, laminarny, odaortalny (kodowany kolorem czerwonym) przepływ na całej długości badanego naczynia. Ao – opuszka aorty, PA – początkowy odcinek pnia płucnego, RCA – prawa tętnica wieńcowa

leczenia kardiologicznego. Operację przeprowadzono z dostępu przez sternotomię pośrodkową, w krążeniu pozaustrojowym. Wykonano kaniulację aorty oraz prawego przedsionka pojedynczą kaniulą żylną. Zastosowano umiarkowaną hipotermię 32°C (*rectum*). Po zakleszczeniu aorty (Ao) i pnia płucnego (*main pulmonary artery*, MPA) podano kardioplegicę krystaliczną do obu pni tętniczych. Otwarto MPA – zidentyfikowano ujęcie prawej tętnicy wieńcowej (*right coronary artery*, RCA) z prawej przedniej części zatoki Valsalwy. Ujęcie RCA wycięto z MPA z marginesem ściany naczynia około 8 × 8 mm. Nacięcie ukośnie aortę wstępującą tuż nad zastawką Ao, cięcie przedłużono ku zatoce prawowieńcowej. Tylną część nacięcia przedłużono ku tyłowi, uzyskując wolny płat ściany Ao – około 6 × 3 mm. Ujęcie RCA zrotowano i wszyto do nacięcia w aorcie wstępującej. Ubytek ściany MPA uzupełniono łatką z CorMatrixu. Kontrolne ECHO nasierdziowe wykazało prawidłowy napływ do RCA od Ao (ryc. 3). Wyjście z krążenia pozaustrojowego przebiegło bez powikłań. W przebiegu pooperacyjnym nie obserwowano zaburzeń funkcji skurczowej komór, arytmii ani cech niewydolności krążenia. Dziecko wypisano po 14 dobach. W kontrolnym badaniu echokardiograficznym, wykonanym w 18. dobie po operacji, zarejestrowano laminarny, odaortalny przepływ w przeszczepionej prawej tętnicy wieńcowej (ryc. 4), prawidłową funkcję zastawki mitralnej oraz prawidłową funkcję skurczową komór. Dziecko pozostaje pod opieką Kliniki Kardiologii WUM.

Dyskusja

Wady wrodzone tętnic wieńcowych występują u 0,2–1,4% populacji^(1,3,4). Do najgroźniejszych należą nieprawidłowe odejścia głównych pni wieńcowych, szczególnie lewej tętnicy wieńcowej od pnia płucnego (*anomalous origin of the left coronary artery from the pulmonary artery*, ALCAPA). Fizjologiczny spadek oporu płucnego prowadzi u tych pacjentów w ciągu kilku dni lub tygodni do obniżenia ciśnienia perfuzyjnego w nieprawidłowo odchodzącej tętnicy wieńcowej i upośledzenia ukrwienia zaopatrywanej przez nią części mięśnia serca. Na skutek powstania znacznej różnicy ciśnień pomiędzy odgałęzieniami tętnicy odchodzącej prawidłowo i patologicznej otwierają się naturalne połączenia pomiędzy nimi; dzięki rozwojowi krążenia obocznego możliwe jest częściowe zachowanie perfuzji wieńcowej patologicznego obszaru od tętnicy odchodzącej prawidłowo, ale w konsekwencji następuje także ucieczka krwi przez nieprawidłową tętnicę do pnia płucnego^(1,5). Ostatecznie, przede wszystkim w przypadkach ALCAPA, w których upośledzenie ukrwienia dotyczy głównie grubościenną, wysokociśnieniową lewą komorę, dochodzi do ciężkiego niedokrwienia, a nawet rozległego zawału mięśnia serca. Przebieg zazwyczaj jest podstępny, ponieważ redukcja perfuzji wieńcowej postępuje stopniowo wraz ze spadkiem oporów płucnych; jednocześnie wczesne objawy ischemii pod postacią bólów stenokardialnych są niezwykle trudne do właściwego zinterpretowania w okresie noworodkowym i wczesnoniemowlęcym. Z tego względu

rozpoznanie zazwyczaj jest stawiane w okresie znacznego zaawansowania choroby, kiedy dołączają się objawy jawnej niewydolności krążenia. Rzadziej (0,002% populacji^(2-4,6)) występujące odejście prawej tętnicy wieńcowej od pnia płucnego (ARCAPA) ma łagodniejszy przebieg, co prawdopodobnie należy wiązać z odmienną fizjologią perfuzji wieńcowej niskociśnieniowej prawej komory⁽⁷⁾, ale trzeba podkreślić, że także w tej postaci istnieje zagrożenie nagłym zgonem: znaczną część przypadków ARCAPA rozpoznano w badaniach pośmiertnych osób w różnych przedziałach wiekowych zmarłych nagle, u których w badaniach patomorfologicznych stwierdzano cechy martwicy mięśnia serca^(2,7). Nieprawidłową strukturę mięśnia serca uwidoczniano w badaniach obrazowych wykonywanych przyżyciowo, szczególnie u pacjentów dorosłych^(4,8-10). Opóźnienie rozpoznania wrodzonych nieprawidłowości tętnic wieńcowych jest związane nie tylko z podstępym, początkowo skąpoobjawowym przebiegiem choroby, ale także z trudną echokardiograficzną wizualizacją tych naczyń u małych dzieci^(11,12). Są one wąskie i cienkościennie, przebiegają w bezpośrednim sąsiedztwie głównych pni tętniczych oraz osierdzia, przez co obrazy tych struktur nakładają się na siebie i zacierają. Nierzadko patologiczne ujścia są położone blisko spodziewanych miejsc prawidłowego odejścia, co stwarza niebezpieczeństwo wytworzenia fałszywie prawidłowych obrazów. Nieprzyspieszony początkowo przepływ krwi we wnętrzu tętnic wieńcowych może być zarejestrowany za pomocą dopplera kolorowego jedynie przy zastosowaniu niskich skal odzworowania prędkości i dużego wzmocnienia, co prowadzi do powstawania intensywnych artefaktów i obniża czułość metody. Z tego względu w rutynowych badaniach echokardiograficznych zazwyczaj nie ocenia się przepływu w tętnicach wieńcowych. Szerokość tętnic wieńcowych oraz intensywność wypełnienia ich wnętrza kolorem istotnie się zwiększają wraz ze spadkiem oporu płucnego i narastaniem podkradania, a co za tym idzie – zwiększa się objętość krwi przepływającej przez patologiczne naczynia. W tej fazie choroby łatwiej uwidocznic nieprawidłowości, ale także niezbędna jest wtedy czujność i rutynowa, dokładna ocena początkowych odcinków pni wieńcowych. Zasada ta obowiązuje szczególnie w przypadku tych pacjentów, u których występują objawy sugerujące istnienie niedokrwienia mięśnia serca, takie jak upośledzenie funkcji skurczowej komór, powiększenie jam serca, wreszcie niedokrwienne niedomykalność zastawki mitralnej⁽¹¹⁻¹³⁾.

Przedstawione trudności sprawiają, że dotychczas opisano zaledwie kilkanaście przypadków izolowanego ARCAPA u dzieci poniżej drugiego roku życia⁽¹³⁻²²⁾. Dodatkowy problem diagnostyczny stwarza fakt, że około 40% przypadków ARCAPA współistnieje z innymi wadami wrodzonymi, takimi jak tetralogia Fallota, okienko aortalno-płucne, dwupłatkowa zastawka aorty, częściowo nieprawidłowy spływ żył płucnych, ubytki w przegrodach serca, błędząca prawa tętnica podobojczykowa^(2,4,6,14,21-24). Szczególnie w wadach, w których dochodzi do wzrostu ciśnienia i objętości przepływu w tętnicy płucnej, ciśnienie perfuzyjne w RCA nie spada poniżej krytycznego poziomu, przez co nie dochodzi do wytwarzania się szerokich połączeń międzytętnicznych ani wyraźnego przepływu z RCA do PA (*pulmonary artery*

– pień płucny). Stąd trudno rozpoznać anomalię wieńcową nie tylko metodami obrazowymi, ale nawet bezpośrednio – w trakcie korekcji chirurgicznej podstawowej wady serca, jak w przypadku ARCAPA towarzyszącej nierestrykcyjnemu ubytkowi przegrody międzykomorowej oraz ubytkowi przegrody międzyprzedsionkowej⁽²³⁾. ARCAPA rozpoznano dopiero po 2,5 roku po pierwotnej korekcji, po ponownym wystąpieniu u dziecka objawów niewydolności krążenia w następstwie dużego przecieku RCA-PA. Metody diagnostyczne takie jak angiotomografia komputerowa, NMR (*nuclear magnetic resonance* – magnetyczny rezonans jądrowy) czy inwazyjna koronarografia cechują się większą czułością i swoistością niż echokardiografia⁽²⁵⁻³⁰⁾, ale stanowią też większe obciążenie dla dziecka, dlatego z zasady, w przeciwieństwie do echokardiografii, nie są wykonywane jako badania pierwszego rzutu w diagnostyce anomalii wieńcowych. Mają znaczenie rozstrzygające, szczególnie u pacjentów, u których stwierdza się cechy niedokrwiennego uszkodzenia mięśnia serca, takie jak zaburzenia funkcji skurczowej komór, kardiomegalia, dysfunkcja zastawek przedsionkowo-komorowych, a badanie echokardiograficzne nie przynosi jednoznacznego wyjaśnienia ich przyczyny. We wszystkich przytoczonych niżej doniesieniach definitywne rozpoznanie i kwalifikację do leczenia kardiochirurgicznego oparto na tych właśnie badaniach (w różnych konstelacjach), rola echokardiografii zaś została ograniczona do co najwyżej wysunięcia podejrzenia i ukierunkowania dalszej diagnostyki.

Typowe kliniczne objawy niewydolności wieńcowej i krążenia w przebiegu ARCAPA, poza nielicznymi wyjątkami, występują w późniejszych okresach życia. U niemowląt i małych dzieci rozpoznanie tej anomalii stawiane jest najczęściej w trakcie diagnostyki szmeru nad sercem, zaburzeń rytmu serca, diagnostyki prowadzonej z powodu infekcji lub nieprawidłowego rozwoju fizycznego; u dzieci nieco starszych – z powodu niespecyficznych dolegliwości bólowych w klatce piersiowej⁽²⁵⁻²⁹⁾. Także u pacjentów dorosłych często występują objawy niecharakterystyczne (np. bóle w prawej połowie klatki piersiowej, w zmiennym stopniu związane z wysiłkiem, niespecyficzne zmiany okresu repolaryzacji komór w badaniach EKG) i dopiero bardzo wnikliwa diagnostyka prowadzi do właściwego rozpoznania^(8-10,30).

W przypadku prezentowanym w niniejszej pracy głównym powodem wczesnej kontroli echokardiograficznej było stwierdzenie w badaniu wykonanym w drugiej dobie po urodzeniu umiarkowanej niedomykalności mitralnej, zawsze niepokojącej u noworodka. Ogólny stan dziecka ani pozostałe znaleziska echokardiograficzne (drożny otwór owalny, nieprawidłowy przebieg prawej tętnicy podobojczykowej) nie tłumaczyły dysfunkcji mitralnej; ponieważ nie znaleziono uchwytnej przyczyny, zdecydowano się na szybką ponowną ocenę. Już po 5 tygodniach obraz ARCAPA był ewidentny: w prezentacji 2D uwidoczniono ujście szerokiej prawej tętnicy wieńcowej do początkowego odcinka pnia płucnego (w okolicy prawej zatoki Valsalvy), a także poszerzenie lewej tętnicy wieńcowej. W badaniu z opcją kolorowego dopplera zaobserwowano intensywny wypływ z patologicznej tętnicy do pnia płucnego, zwiększony oda-

ortalny przepływ w lewej tętnicy wieńcowej oraz kręte, żywe przepływy w obrębie przegrody międzykomorowej i wolnej ściany prawej komory odpowiadające wytwarzającym się naczyniom krążenia obocznego. Cechy znacznego stopnia podkradania krwi z krążenia wieńcowego przez prawą tętnicę wieńcową do pnia płucnego uznano za istotny czynnik ryzyka wystąpienia powikłań, wobec czego, pomimo braku ewidentnych cech niedokrwiennego uszkodzenia mięśnia serca, podjęto decyzję o przeprowadzeniu operacji korekcyjnej. Obraz echokardiograficzny wady nie budził wątpliwości, zdecydowano się więc na odstąpienie od przeprowadzenia innych badań wizualizacyjnych i zakwalifikowano dziecko do przeszczepienia ujścia prawej tętnicy wieńcowej do prawej zatoki Valsalvy.

Należy podkreślić, że opublikowane wczesne wyniki leczenia operacyjnego izolowanej ARCAPA są bardzo dobre. Opisany przypadek zgonu dotyczył pacjenta ze złożoną wadą serca (tetralogia Fallota z atrezią zastawki płucnej⁽⁶⁾). Z dostępnego piśmiennictwa wynika też, że ryzyko nagłego i niespodziewanego wystąpienia istotnych powikłań z nagłym zgonem włącznie jest znaczne, stąd powszechna zgoda cytowanych w pracy autorów, że leczeniem z wyboru w przypadku pacjentów z ARCAPA jest reimplantacja prawej tętnicy wieńcowej do aorty, także w okresie noworodkowym i niemowlęcym. W przypadku pacjentów w wieku podeszłym lub obciążonych innymi problemami zdrowotnymi rozważa się również zamknięcie patologicznej tętnicy w celu zapobieżenia podkradaniu krwi z łożyska wieńcowego lub – wyjątkowo – odstępuje się od leczenia chirurgicznego⁽¹⁰⁾. We wszystkich pozostałych przytoczonych pracach podjęto decyzję o korekcji. Warto zaznaczyć, że mimo szybko zwiększającej się liczby publikacji dotyczących diagnostyki i leczenia tej wady obserwowana grupa pacjentów jest ciągle mała (nawet duże ośrodki raportują pojedyncze przypadki), a obserwacje pooperacyjne są zbyt krótkie, aby umożliwić miarodajną analizę statystyczną i jednoznacznie scharakteryzować naturalną historię choroby oraz odległe wyniki leczenia operacyjnego. Dostępny materiał wskazuje na ogromne zróżnicowanie przebiegu – od rzadko występującej prezentacji w okresie noworodkowym po całkowicie przypadkowe rozpoznania u osób w wieku podeszłym. Podnoszone jest znaczenie zakresu unaczynienia mięśnia serca przez patologiczną tętnicę. W przypadku dominacji prawej tętnicy wieńcowej zaopatruje ona także rozległy fragment mięśnia lewej komory, sugeruje się więc cięższy przebieg kliniczny u tych pacjentów. Ze względu na niewielką łączną liczbę opisanych przypadków brak jednak dowodów na to, że potencjalnie korzystny wariant

anatomiczny mógłby uzasadniać przyjęcie postawy wyczekującej i odroczenie leczenia operacyjnego. Z tego powodu w prezentowanym przypadku nie uznano za konieczne przedoperacyjne ustalenia, która z tętnic wieńcowych jest dominująca, co wymagałoby rozszerzenia diagnostyki o któreś z badań angiograficznych. Światło na możliwy przebieg pooperacyjny rzucają wieloletnie obserwacje licznej grupy pacjentów po anatomicznej korekcji TGA (*transposition of the great arteries* – przełożenie wielkich pni tętniczych), której częścią jest reimplantacja tętnic wieńcowych do neoaoerty. Również w przypadku korekcji ARCAPA należy unikać nadmiernego napięcia i zagięcia przeszczepianej tętnicy wieńcowej, a także spodziewać się wystąpienia problemów zakrzepowych i odległych w czasie zwężeń przeszczepionego naczynia. W analizowanym materiale opisano dwa takie przypadki^(6,31). W jednym z nich⁽³¹⁾ zakrzepica wystąpiła u 21-letniego pacjenta nawrotowo – dwukrotnie, w prawidłowo odchodzącej lewej tętnicy wieńcowej, co uznano za następstwo zmniejszenia się przepływu w uprzednio nadmiernie perfundowanej tętnicy. To nieoczekiwane powikłanie doprowadziło autorów do postawienia pytania, czy reimplantacja prawej tętnicy wieńcowej jest istotnie optymalną techniką korekcji ARCAPA, jeśli w następstwie przeprowadzonego leczenia może dojść do nagłego zamknięcia dotychczas zdrowej lewej tętnicy wieńcowej. Występowanie problemów zakrzepowych u pacjentów późno operowanych, a więc z długotrwałym przebiegiem choroby, wydaje się dodatkowym argumentem przemawiającym za możliwie wczesną korekcją. W obu opisanych przypadkach zakrzepicy leczenie przeciwzakrzepowe udrożniło zajęłą tętnicę wieńcową. Niezależnie od wieku pacjenta, w którym przeprowadzono operację, osoby po korekcji ARCAPA muszą być objęte systematyczną, długoletnią opieką kardiologiczną.

Etyczna aprobata i zgoda na wykorzystanie danych

Opis przypadku bazuje na istniejącej dokumentacji pacjenta. Otrzymano zgodę rodziców na przedstawienie danych klinicznych dziecka bez ujawnienia wizerunku i danych osobowych.

Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść niniejszej publikacji oraz rościć sobie do niej prawo.

Piśmiennictwo

1. Dodge-Khatami A, Mavroudis C, Backer CL: Anomalous origin of the left coronary artery from the pulmonary artery: collective review of surgical therapy. *Ann Thorac Surg* 2002; 74: 946–955.
2. Su JT, Krishnamurthy R, Chung T, Vick GW 3rd, Kovalchin JP: Anomalous right coronary artery from the pulmonary artery: noninvasive diagnosis and serial evaluation. *J Cardiovasc Magn Reson* 2007; 9: 57–61.
3. Jacobs ML, Mavroudis C: Anomalies of the coronary arteries: nomenclature and classification. *Cardiol Young* 2010; 20 (Suppl. 3): 15–19.
4. Winner MW 3rd, Raman SV, Sun BC, Crestanello JA: Preoperative assessment of anomalous right coronary artery arising from the main pulmonary artery. *Case Rep Med* 2011; 2011: 642126.
5. Edwards JE: The direction of blood flow in coronary arteries arising from the pulmonary trunk. *Circulation* 1964; 29: 163–166.
6. Williams IA, Gersony WM, Hellebrand WE: Anomalous right coronary artery arising from the pulmonary artery: A report of 7 cases and a review of the literature. *Am Heart J* 2006; 152: 1004.e9–1004.e17.

7. Radke PW, Messmer BJ, Haager PK, Klues HG: Anomalous origin of the right coronary artery: preoperative and postoperative hemodynamics. *Ann Thorac Surg* 1998; 66: 1444–1449.
8. Halim SA, Wang A, Harrison JK: Anomalous right coronary artery origin from the pulmonary artery (ARCAPA) coexisting with obstructive atherosclerotic disease of the left coronary artery. *J Invasive Cardiol* 2011; 23: E260–E261.
9. Gilmour J, Kafka H, Ropchan G, Johri AM: Anomalous right coronary artery: A multimodality hunt for the origin. *Case Rep Cardiol* 2011; 2011: 286598.
10. Mastoris KL, Quereshi A, Subrayappa NK, Martinez MW, Wu J: Anomalous origins of a coronary artery from the pulmonary artery: A series of three case reports undetected into adulthood. *Int J Case Rep Images* 2015; 6: 391–395.
11. Herlong JR: Congenital anomalies of the coronary arteries. In: Lai WW, Mertens LL, Cohen MS, Geva T (eds.): *Echocardiography in Pediatric and Congenital Heart Disease: From Fetus to Adult*. Wiley-Blackwell, Oxford 2009.
12. Courand PY, Bozio A, Ninet J, Henaine R, Veyrier M, Bakloul M *et al.*: Focus on echocardiographic and Doppler analysis of coronary artery abnormal origin from the pulmonary trunk with mild myocardial dysfunction. *Echocardiography* 2013; 30: 829–836.
13. Mahdavi M, Vahidshahi K, Tehrani RB, Ali-Akbar HP, Godarzi MR: Anomalous right coronary artery from the pulmonary artery (ARCAPA), and aberrant right subclavian artery in a 2-month infant with heart failure. *Cardiol Young* 2014; 24: 935–937.
14. Kajihara N, Asou T, Takeda Y, Kosaka Y: Surgical treatment of an infant with myocardial ischemia due to an anomalous origin of the right coronary artery from the main pulmonary artery: report of a case. *Surg Today* 2009; 39: 969–971.
15. Gupta R, Marwah A, Shrivastava S: Anomalous origin of right coronary artery from pulmonary artery. *Ann Pediatr Cardiol* 2012; 5: 95–96.
16. Vairo U, Marino B, De Simone G, Marcelletti C: Early congestive heart failure due to origin of the right coronary artery from the pulmonary artery. *Chest* 1992; 102: 1610–1612.
17. Kim KS, Jo EY, Yu JH, Kil HR: Anomalous right coronary artery from pulmonary artery discovered incidentally in an asymptomatic young infant. *Korean J Pediatr* 2016; 59 (Suppl. 1): S80–S83.
18. Al-Dairy A, Rezaei Y, Pouraliakbar H, Mahdavi M, Bayati P, Gholampour-Dehaki M: Surgical repair for anomalous origin of the right coronary artery from the pulmonary artery. *Korean Circ J* 2017; 47: 144–147.
19. Manzano PR, Dominguez P, Merino LL, Sciegata A, Guidet V, Nento D *et al.*: Origen anómalo de arteria coronaria derecha desde arteria pulmonar: reimplante directo en aorta en un niño de 8 meses de edad. *Rev Fed Arg Cardiol* 2010; 39: 133–135.
20. Jones RC, Boston US, Joshi VJ, Goldberg SP, Knott–Craig CJ: Diagnosis and repair of anomalous right coronary artery from pulmonary artery in a neonate. *Congenit Heart Dis* 2011; 6: 48–50.
21. Hakim K, Boussaada R, Hamdi I, Ouarda F: Anomalous origin of the right coronary artery from the pulmonary artery. Two case report. *Egypt Heart J* 2014; 66: 283–286.
22. Bossert T, Walther T, Doll M, Gummert JF, Kostelka M, Mohr FW: Anomalous origin of the right coronary artery from the pulmonary artery combined with aortic valve stenosis. *Ann Thorac Surg* 2005; 79: 347–348.
23. Canale LS, Monteiro AJ, Rangel I, Wetzel E, Pinto DF, Barbosa RC *et al.*: Surgical treatment of anomalous coronary artery from the pulmonary artery. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2009; 8: 67–69.
24. Hoffman P, Dobrowolski P, Pregowski J, Kowalski M: Anomalous origin of the right coronary artery from the pulmonary artery coexisting with aortopulmonary window and partial abnormal drainage of the pulmonary vein. *Eur J Echocardiogr* 2011; 12: 803.
25. Gilkeson RC: Case: Rare disease ARCAPA in 1-year-old child. *DSCT.com – Dual Source CT Community*, 2010. Available from: <http://www.dsct.com/index.php/case-rare-disease-arcapa-in-1-year-old-child/>.
26. Wu QY, Xu ZH: Surgical treatment of anomalous origin of coronary artery from pulmonary artery. *Chin Med J (Engl)* 2008; 121: 721–724.
27. Kühn A, Kasnar-Samprec J, Schreiber C, Vogt M: Anomalous origin of the right coronary artery from the pulmonary artery (ARCAPA). *Int J Cardiol* 2010; 139: e27–e28.
28. Bhatia SR, English RF: Anomalous right coronary artery arising from the pulmonary artery: case report and review of literature. *Cardiol Young* 2012; 22: 346–348.
29. Al-Ammouri IA, Berkwits KM, Fahey JT: Anomalous right coronary artery origin from the pulmonary artery trunk in an asymptomatic 4-year-old boy. *Pediatr Cardiol* 2009; 30: 1039–1040.
30. Gibernau JMA, Recalde AA, Marques RB: Síndrome de ARCAPA en la edad adulta. *Rev Esp Cardiol* 2017; 70: 666.
31. Han SY, Heitner JF, Brener SJ: Recurrent coronary artery thrombosis after anomalous right coronary artery re-implantation to the aorta: *Catheter Cardiovasc Interv* 2013; 82: 163–167.