

گزارش دو مورد قوس آئورتی دوگانه

حسن زمانی^{۱*}، کاظم بابازاده^۱(MD)، ایرج محمدزاده^۱(MD)، محسن محمدی^۲(MD)،

محمد عباسی^۳(MD)، رامین بقایی تهرانی^۴(MD)

۱- مرکز تحقیقات بیماری های غیر واگیر کودکان، دانشگاه علوم پزشکی بابل

۲- دانشگاه علوم پزشکی بابل

۳- گروه جراحی قلب دانشگاه علوم پزشکی مشهد

۴- گروه جراحی قلب، دانشگاه علوم پزشکی ایران

دریافت: ۹۲/۶/۱۲، اصلاح: ۹۲/۸/۱۵، پذیرش: ۹۲/۱۰/۱۵

خلاصه

سابقه و هدف: حلقه های عروقی به عنوان یک نقص نادر مادرزادی قلب است که قوس آئورتی دوگانه شایع ترین نوع آن می باشد. بیماران با قوس آئورت دوتایی می توانند بدون علامت بوده و یا علائم غیراختصاصی مانند دیسترس تنفسی، اختلال در بلع و وزن گیری داشته باشند. از این رو تشخیص بالینی و شک به بیماری بسیار مشکل می باشد. با توجه به تظاهرات غیر اختصاصی این بیماری، دو بیمار با تشخیص حلقه عروقی معرفی می گردد.

گزارش موارد: بیمار اول شیرخوار ۸ ماهه است، که به دنبال دیسترس تنفسی و اختلال بلع، در بررسی دستگاه گوارش فوقانی با ماده حاجب اثر فشاری بر مری دیده شد و پس از اکوکاردیوگرافی و CT آنژیوگرافی، قوس آئورت دوگانه تشخیص داده شد. بیمار دوم شیرخوار ۴ ماهه با سابقه بستری مکرر به علت عفونت های ریوی و عدم وزن گیری مناسب است که در بررسی گرافی بلع باریم، شک به مسائل عروقی مطرح و با اکوکاردیوگرافی و آنژیوگرافی، تشخیص قوس آئورت دوگانه مسجل شد. پس از عمل جراحی و رفع حلقه عروقی علائم تنفسی هر دو بیمار کاهش یافته و وزن گیری مناسب پیدا کردند.

نتیجه گیری: در بیماران با تنگی نفس به خصوص درگیری راههای هوایی فوقانی که به درمانهای معمول پاسخ نمی دهند، انجام گرافی بلع باریم و حتی اکوکاردیوگرافی در تشخیص مواردی چون حلقه های عروقی و تنگی های فشاری پیشنهاد می شود.

واژه های کلیدی: آنومالی عروقی، قوس آئورت دوگانه، عفونت تنفسی مکرر.

مقدمه

حلقه های عروقی به عنوان یک نقص مادرزادی عروق شریانی اصلی بدن (قوس آئورت و شاخه های آن) شناخته می شوند که تراشه و مری را تحت فشار قرار می دهند (۱). قوس آئورتی دوگانه شایع ترین نوع حلقه های عروقی می باشد و شیوع ناهنجاری های قوس آئورت در حدود ۰/۵٪ بیماری های مادرزادی قلب را شامل می شود (۲). انواع دیگر آن شامل قوس آئورتی راست همراه با لیگامان شریانی سمت چپ؛ شریان بی نام غیرطبیعی که کمی جلوتر از مکان معمول و در سمت چپ بر روی قوس آئورت منشاء می گیرد. شریان کاروتید سمت چپ غیر-طبیعی که نسبت به حالت عادی بیشتر در سمت راست منشاء گرفته و از قدام نای عبور می نماید و شریان پولمونر چپ غیرطبیعی (نوار عروقی) (۳و۴). این نقص مادرزادی به طور نادر با سایر ناهنجاری های قلبی مادرزادی مثل تتراولوژی فالوت و جابه جایی عروق بزرگ همراهی دارد (۵و۶). حلقه های عروق بایستی در بیماران با دیسترس تنفسی و سوء تغذیه و عفونت های ریوی مکرر در دوران شیرخوارگی

یا بزرگسالی مدنظر باشد. تشخیص زودرس و درمان مناسب می تواند منجر به درمان قطعی گردد. (۷) از طرفی تاخیر در درمان باعث عدم بازگشت آسیب تراکتو برونشیا بلع اثر فشاری مزمن بر راههای هوایی حتی پس از اصلاح جراحی انومالی قوس می شود (۸). بیماران با قوس آئورت دوتایی می توانند بدون علامت بوده (۹) و یا علائم غیراختصاصی مانند دیسترس تنفسی و خشونت صدا و سرفه پارس مانند داشته باشند و ممکن است با حمله های ناگهانی آپنه و ایست قلبی تنفسی تظاهر نمایند. از این رو تشخیص بالینی و شک به بیماری بسیار مشکل بوده و باید در هر بیماری با دیسترس تنفسی زودرس و یا مقاوم به درمان مکرر مدنظر باشد (۱۰). تشخیص بیماری در گذشته با ازوفاگوگرام توسط باریم بوده است ولیکن اکوکاردیوگرافی در ترکیب با MRI یا CT اسکن معمولاً ضایعه را مشخص می کند (۴). درمان جراحی برای بیماران علامت داری که شواهدی از تحت فشار قرار گرفتن نای در آنها وجود دارد توصیه می شود (۱۱). با توجه به

* مسئول مقاله: دکتر حسن زمانی

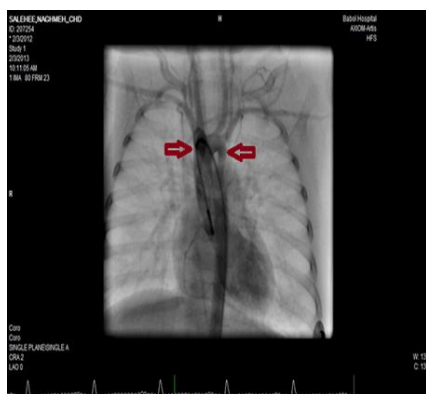
آدرس: بابل، امیرکلا، بیمارستان کودکان، مرکز تحقیقات بیماری های غیرواگیر کودکان. تلفن: ۰۱۱۱-۳۲۴۶۹۶۳

e-mail: zamanihassan@yahoo.com

بیمار دوم: شیرخوار ۴ ماهه با سابقه بستری مکرر در بیمارستان (۳ نوبت) با تشخیص عفونت های ریوی مکرر، عدم وزن گیری مناسب (وزن تولد: ۳/۵ کیلوگرم) وزن اخیر ۴ کیلوگرم، با تنفس های صدادار در دم و بازدم مراجعه نموده بود. جهت بررسی ریفلاکس معده به مری گرافی بلع باریم از وی به عمل آمد که با مشاهده اثر فشاری از طرفین مسیر بلع باریم در قسمت فوقانی مری و شک به مسائل عروقی به متخصص قلب ارجاع شد (تصویر ۳). در اکوکاردیوگرافی اختلالات قوس آنورت (قوس آنورت دو شاخه) مطرح شد. با توجه به شرایط بیمار (حال عمومی و بستری مکرر) مورد آنژیو گرافی قرار گرفت که در تزریق آنورت صعودی، قوس آنورت دوگانه که حلقه عروقی تشکیل داده بود، دیده شد (تصویر ۴). این بیمار نیز جهت درمان نهایی به جراح قلب معرفی شد. هر دو بیمار ۸ ماه پس از جراحی پیگیری شدند و علائم آنها به میزان زیادی بر طرف شد.



تصویر ۳. اثر فشاری در دوطرف قسمت فوقانی مری در گرافی بلع باریم بیمار دوم



تصویر ۴. قوس آنورت دوگانه در آنژیوگرافی بیمار دوم

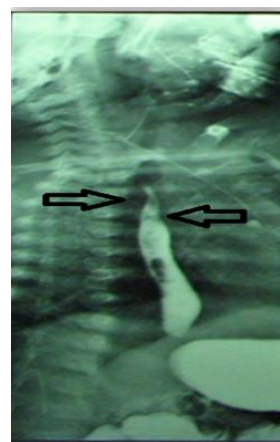
بحث و نتیجه گیری

توجه به درگیری راه های هوایی فوقانی ریه در معاینه فیزیکی ممکن است تداعی کننده یک اثر فشاری حلقه عروقی روی تراشه باشد که در بیمار معرفی شده این نکته کلیدی جهت تشخیص زودرس بوده است. بیمار دوم ما نیز با عفونت های مکرر تنفسی، اختلال در رشد و تنفس صدا دار ناشی از اثر فشاری حلقه عروقی روی راه های هوایی و غذایی بیمار مراجعه نموده که نکته کلیدی تشخیصی زودرس بوده است. این نقص مادرزادی اولین بار با علائم بلع دردناک

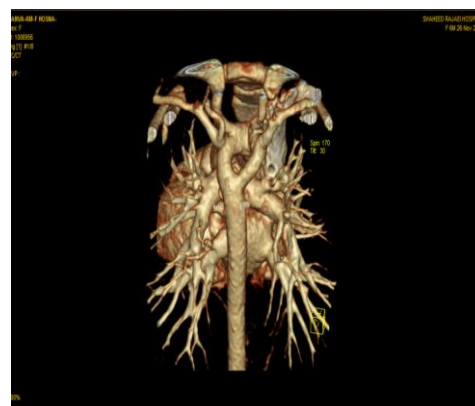
شیوع فراوان بیماران با تابلوی دیسترس تنفسی که عفونت های تنفسی و حساسیت ریوی شایع ترین علت آن می باشد، دو بیمار با دیسترس تنفسی به علت حلقه عروقی با تظاهرات مختلف بیماری معرفی می گردد تا توجه به این مسئله در تشخیص افتراقی مدنظر باشد زیرا ارجاع متخصص قلب اطفال و اکوکاردیوگرافی جهت تشخیص، بسیار در پیش آگهی و طول عمر بیمار موثر می باشد.

گزارش موارد

بیمار اول: شیرخوار ۸ ماهه با وزن ۸ کیلوگرم که با شروع غذای کمکی (فرنی) دچار اختلال در بلع شده بود و با سابقه بعلت دیسترس تنفسی خفیف تا متوسط و عدم پاسخ به درمان های معمول با شک به آسم به درمانگاه آسم و آلرژی ارجاع شده بود. در معاینه خشونت تنفسی در دم و بازدم و ویزیگ در هر دو ریه داشت. سابقه تنفس صدا دار، بخصوص بدنبال عفونت های تنفسی را ذکر مینمود. در بررسی دستگاه گوارش فوقانی توسط ماده حاجب اثر فشاری دو طرفه در قسمت فوقانی مری دیده شد (تصویر ۱) و پس از ارجاء به کاردیولوژیست اطفال در اکوکاردیوگرافی نیز گزارش اختلال در قوس آنورت (قوس آنورت دوگانه) مطرح شد و جهت تکمیل اقدام تشخیص بیمار CT آنژیوگرافی (تصویر ۲) بعمل آمد و قوس آنورت دوگانه تشخیص داده شد. بیمار به جراح قلب معرفی و پس از جراحی و رفع حلقه عروقی علائم بیمار نیز بهبود یافت.



تصویر ۱. اثر فشاری در دوطرف قسمت فوقانی مری در گرافی بلع باریم بیمار اول



تصویر ۲. قوس آنورت دو گانه در CT آنژیوگرافی بیمار اول

که از نظر علائم بالینی شبیه بیمار ما بوده است ولیکن عکس قفسه سینه بیمار ما نرمال بوده است. بیماران ذکر شده همانند بیمار ما ناهنجاری قلبی مادرزادی همزمان را نداشته اند (۲۰).

بنابراین در بیماران با تنگی نفس، به خصوص درگیری راه‌های هوایی فوقانی که به درمان‌های معمول پاسخ نمی‌دهند و ممکن است علل شایعی چون برگشت غذا از مری به معده در نظر باشد، انجام گرافی بلع باریوم و حتی اکوکاردیوگرافی در تشخیص مواردی چون حلقه‌های عروقی و تنگی‌های فشاری ضروری بوده و در کاهش طول مدت بستری و درمان بیماری و بقای عمر بیماران موثر می باشد.

تقدیر و تشکر

بدینوسیله از پرسنل محترم واحد توسعه تحقیقات بالینی بیمارستان کودکان امیرکلا به خصوص خانم دکتر محدثه میرزاپور و خانم فائزه آقاجان پور و خانواده بیماران گزارش شده، تشکر و قدردانی می گردد.

گزارش شد (۱۴-۱۲). حلقه‌های عروقی ممکن است سبب علائم تنفسی و سوء تغذیه در شیرخواران و کودکان و حتی سنین بالاتر شوند و در بسیاری از موارد بدون علامت باشند (۱۵و۱۶).

شماری از بیماران ممکن است به طور اتفاقی یافت شوند، چراکه اگر این حلقه‌های عروقی تراشه یا مری را تحت فشار قرار ندهند، ممکن است بدون علامت باشند. در حالی‌که در بیمار دوم ما اثر فشاری روی تراشه سبب تنگی نفس بیمار شده بود (۱۷و۱۴و۱۱). در سال ۲۰۱۲ یک مورد نادر حلقه عروقی با قوس سمت چپ در یک دختر ۷ ساله گزارش شد که مدت‌ها با عفونت مکرر ریوی تحت درمان بوده است (۱۸). در حالی‌که در بیمار دوم ما به دلیل اثر فشاری روی تراشه از همان زمان شیرخوارگی علامت دار بوده است. در تایوان در سال ۲۰۰۳ یک مورد نوزاد یک روزه دختر با تنگی نفس و استفراغ بعد از تولد گزارش شد که در اکوکاردیوگرافی یک قوس آنورت راست بدون ناهنجاری قلبی دیگر گزارش شد که شباهت فراوانی به تظاهرات بیمار دوم ما داشته است که در دوران نوزادی بستری بوده است (۱۹). شیرخوار ۵ ماهه با تظاهرات عفونت‌های مکرر ریوی و تنگی نفس که در عکس قفسه سینه سایه تراشه مشهود نبوده، در هند گزارش شد

Two Cases Report of Double Aortic Arch

H. Zamani (MD)^{1*}, K. Babazadeh (MD)¹, I. Mohammadzadeh (MD)¹,
M. Mohammadi (MD)², M. Abasi (MD)³, R. Baghaie Tehrani (MD)⁴

1. Non-Communicable Pediatric Diseases Research Center, Amirkola Children's Hospital, Babol University of Medical Sciences, Babol, Iran

2. Babol University of Medical Sciences, Babol, Iran

3. Department of Cardiology, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran

4. Department of Cardiology, Iran University of Medical Sciences, Tehran, Iran

J Babol Univ Med Sci; 16(4); Apr 2014; pp: 74-78

Received: Sep 3rd 2013, Revised: Nov 6th 2013, Accepted: Jan 5th 2014.

ABSTRACT

BACKGROUND AND OBJECTIVE: Vascular ring is a rare congenital heart defect that double aortic arch is the most common type of it. Patients with double aortic arch can be asymptomatic or have non-specific symptoms such as respiratory distress, swallowing disorder and failure to thrive. Thus the clinical diagnosis is difficult. Given the high prevalence of respiratory distress signs in children that commonly are related to respiratory infection, we describe two cases with respiratory distress that they was diagnosed with vascular rings.

CASES: The first patient was an 8 month old infant presented with respiratory distress and dysphagia, in barium swallow, pressure effect on esophageal was seen and after echocardiography and CT angiography, double aortic arch was confirmed. The second patient was 4 months old infant with a history of frequent hospitalizations due to respiratory infections and inappropriate weight gain that her barium swallow radiograph was suspected for vascular problem and double aortic arch was confirmed by echocardiography and angiography. In both patients, respiratory symptoms improved after surgery and their weight gain returned to normal.

CONCLUSION: In patients with respiratory distress, especially with upper airways involvements who do not respond to conventional treatment, barium swallow x-ray study and echocardiography is recommended to rule out the vascular rings.

KEY WORDS: *Vascular anomaly, Double aortic arch, Recurrent respiratory tract infections.*

Please cite this article as follows:

Zamani H, Babazadeh K, Mohammadzadeh I, Mohammadi M, Abasi M, Baghaie R. Two cases report of double aortic arch. J Babol Univ Med Sci 2014;16(4):74-78.

* Corresponding Author; H. Zamani (MD)

Address: Non-Communicable Pediatric Diseases Research Center, Amirkola Children's Hospital, Babol, Iran

Tel: + 98 111 3246963

E-mail: zamanihassan@yahoo.com

References

1. Winn RA, Chan ED, Langmack EL, Kotaru C, Aronsen E. Dysphagia, chest pain, and refractory asthma in a 42-year-old woman. *Chest* 2004;126(5):1694-7.
2. Joshi AR, Garg A, Vhanmane B, Merchant S, Nerurkar N. A vascular ring variant: an unusual case of vocal cord palsy due to an anomalous left carotid artery arising from a retrotracheal arch of the aorta. *Br J Radiol* 2006;79(945):e81-3.
3. Backer CL, Mavroudis C, Rigsby CK, Holinger LD. Trends in vascular ring surgery. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2005;129(6):1339-47.
4. Kliegman RM, Stanton BMD, Geme JS, Schor NF, Behrman RE. 19th ed. *Nelson textbook of pediatrics: Expert Consult*. Philadelphia: Elsevier Health Sciences, Saunders 2011; pp: 1596-8.
5. Allen HD. Moss & Adams heart disease in infants, children, and adolescents: including the fetus and young adult. Philadelphia: Wolters Kluwer Health; Lippincott Williams & Wilkins 2013; pp: 778-82
6. Li ZQ, Liu AJ, Li G, Liu Y, Zhu YB, Liu YL. Two cases of a rare association: double aortic arch with tetralogy of Fallot. *J Cardiothorac Surg* 2013;8:39.
7. Skaric I, Jakobovic J, Karaman I M, Kondza K, Babic I. Variation of vascular ring as a cause of extubation failure. *Signa Vitae* 2008;3(2):29-31.
8. Yoo SJ, Bradley TJ. Vascular ring, pulmonary arterial sling, and related condition. In: Anderson RH, Baker EJ, Redington A, et al. *Pediatric cardiology*. 3rd ed. Philadelphia: Elsevier Health Sciences, Churchill Livingstone 2009; p: 982.
9. Alsenaidi K, Gurofsky R, Karamlou T, Williams WG, McCrindle BW. Management and outcomes of double aortic arch in 81 patients. *Pediatrics* 2006;118(5):25.
10. Gholampour Dehaki M, Omrani G, Alizadeh Ghavidel AR, et al. Dysphagia lusoria caused by an aberrant right subclavian artery: vascular ring. *Iranian Heart J* 2010; 11(3); pp: 40-2.
11. Dekeyser S, Gosselin R, Delrue L. Silent double aortic arch in an elderly patient. *JBR BTR* 2013;96(1):45.
12. Carrizo GJ, Marjani MA. Dysphagia lusoria caused by an aberrant right subclavian artery. *Tex Heart Inst J* 2004;31(2):168-71.
13. Alex Haller Jr J. A child with dysphagia lusoria. *Am J Dis Child* 1987;141(5):480. doi:10.1001/archpedi.1987.04460050022020.
14. Freed K, Low VH. The aberrant subclavian artery. *AJR Am J Roentgenol* 1997;168(2):481-4.
15. Bove T, Demanet H, Casimir G, Viart P, Goldstein JP, Deuvaert FE. Tracheobronchial compression of vascular origin. Review of experience in infants and children. *J Cardiovasc Surg* 2001;42(5):663-6.
16. Tsutsumi M, Ueno Y, Kazekawa K, Tanaka A, Nomoto Y. Aberrant right subclavian artery--three case reports. *Neurol Med Chir* 2002;42(9):396-8.
17. Epstein DA, Debord JR. Abnormalities associated with aberrant right subclavian arteries-a case report. *Vasc Endovascular Surg* 2002;36(4):297-303.
18. Ece I, Pac FA, Pac M, Balli S. Double aortic arch with dominant left arch: case report. *Turk Kardiyol Dern Ars* 2012;40(6):544-7.
19. Hong YT, Fu YC, Chen CH, et al. Vascular ring due to double aortic arch with atretic left arch and left ligamentum arteriosum: report of one case. *Acta Paediatr Taiwan* 2003; 44(3):168-70.
20. Ramayyan AS, Abraham S, Agarwal R, Cherian KM, Pezzella AT. Double Aortic Arch. *CTSNet Journal* 2009. Available at: <http://www.ctsnet.org/sections/clinicalresources/clinicalcases/article-23.htm>