



Case Report

Giant Aneurysm of Left Coronary Artery of 18-Month-Old Infant: A Case Report

Hassan Esmaeili (M.D)^{*1} , Fatemeh Cheraghali (M.D)² , Zohreh Akbari Jokar (M.D)³ 

¹ Assistant Professor of Pediatric Cardiology, Gorgan Congenital Malformations Research Center, Department of Pediatrics, Taleghani Medical Educational Center, Golestan University of Medical Sciences, Gorgan, Iran. ² Assistant Professor, Department of Pediatrics, Faculty of Medicine, Golestan University of Medical Sciences, Gorgan, Iran. ³ Senior Resident of Pediatrics, Taleghani Medical Education Center, Golestan University of Medical Sciences, Gorgan, Iran.

Abstract

Kawasaki disease is a medium-size vasculitis with peak incidence among infants of 9 to 11 month age. This case report represents a female infant of 18-month age whom was admitted to the Taleghani Pediatric Center of Gorgan, Iran; with referral for admission due to persistent fever for roughly 2 weeks despite various outpatient treatments. Upon the admission, Echocardiographic study was performed to assess whether the patient fulfils cardiac criteria of Kawasaki disease which was consistent with the diagnosis and also positive for serious coronary complications in the infant. General condition of the patient improved as the treatment with both IVIG and Corticosteroids was initiated and carditis seemed to vanish in echocardiographic studies but as expected aneurysmal growth can last for over 80 days and in this case serial echocardiographic studies confirmed the formation of giant coronary aneurysms. Diagnosis of Kawasaki disease is based on persistent fever and consistency with clinical criteria and the main purpose of this case report was to emphasize the need to consider this disease in cases of persistent fever to avoid the serious following complications.

Keywords: Infant, Coronary Aneurysm, Kawasaki Disease

*Corresponding Author: Hassan Esmaeili (M.D), E-mail: he_md1972@yahoo.com

Received 22 Nov 2021

Revised 9 Apr 2022

Accepted 26 Apr 2022

Published online 6 Jul 2022

Cite this article as: Esmaeili H, Cheraghali F, Akbari Jokar Z. [Giant Aneurysm of Left Coronary Artery of 18-Month-Old Infant: A Case Report]. J Gorgan Univ Med Sci. 2022; 24(1): 100-104. [Article in Persian]





گزارش مورد

گزارش یک مورد آنوریسم ژانت شریان کرونر چپ (LCA) در شیرخوار ۱۸ ماهه با بیماری کاوازاکی

دکتر حسن اسمعیلی*^۱، دکتر فاطمه چراغعلی^۲، دکتر زهره اکبری جوکار^۳

^۱ استادیار قلب کودکان، مرکز تحقیقات ناهنجاری‌های مادرزادی، گروه اطفال، دانشگاه علوم پزشکی گلستان، گرگان، ایران. ^۲ استادیار، گروه اطفال، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی گلستان، گرگان، ایران. ^۳ رزیدنت ارشد طب اطفال، مرکز آموزشی درمانی طالقانی، دانشگاه علوم پزشکی گلستان، گرگان، ایران.

چکیده

بیماری کاوازاکی یک بیماری التهابی عروق متوسط با حداکثر شیوع در شیرخواران ۹ تا ۱۱ ماهه است. مورد معرفی شده شیرخوار دختر ۱۸ ماهه بود که با شکایت تب پایدار به مدت دو هفته به رغم استفاده از درمان‌های سریایی در مرکز کودکان طالقانی گرگان بستری شد. بررسی اکوکاردیوگرافیک با شک بالینی قوی از نظر بررسی همخوانی وضعیت قلبی بیمار با کرایتریای تشخیصی قلبی در بیماری کاوازاکی انجام گرفت که منجر به تایید تشخیص و کشف عوارض جدی کرونری در شیرخوار شد. با شروع درمان به صورت همزمان با IVIG و کورتیکواستروئید بهبود در وضعیت عمومی شیرخوار حاصل شد. بهبود کاردیت حاصل از بیماری در اکوکاردیوگرافی رویت شد؛ اما طبق انتظار افزایش سائز آنوریسم عروق کرونر تا بیش از ۸۰ روز می‌تواند ادامه داشته باشد. در بیمار ما افزایش سائز در مطالعات اکوکاردیوگرافی سریال رویت شد و ایجاد آنوریسم ژانت در بیمار تایید گردید. تشخیص بیماری کاوازاکی بر اساس وجود تب پایدار و سایر کرایتریای تشخیصی است و هدف از این گزارش مورد تاکید بر توجه مداوم به این تشخیص به منظور جلوگیری از عوارض جدی بعدی این بیماری است.

واژه‌های کلیدی: نوزاد، آنوریسم کرونر، بیماری کاوازاکی

* نویسنده مسؤول: دکتر حسن اسمعیلی، پست الکترونیکی he_md1972@yahoo.com

نشانی: گرگان، مرکز آموزشی درمانی شهید صیاد شیرازی، مرکز تحقیقات ناهنجاری‌های مادرزادی گرگان، تلفن ۰۱۷-۲۲۲۰۲۵۶۵، شماره ۲۲۲۲۴۰۵۵

وصول ۱۴۰۰/۹/۱ اصلاح نهایی ۱۴۰۱/۱/۲۰ پذیرش ۱۴۰۱/۲/۶ انتشار ۱۴۰۱/۴/۱۵

مقدمه

بیماری کاوازاکی (Kawasaki Disease) که در گذشته سندرم غدد لنفاوی مخاط پوستی (Mucocutaneous Lymphnode Syndrome) نامیده می‌شد؛ یک واسکولیت عروق متوسط است که در کودکان آسیایی شیوع بیشتری دارد. به طوری که در سال ۲۰۱۲ در ژاپن بروز بیماری در حد ۲۶۴/۸ در یک‌صد هزار نفر جمعیت کمتر از ۴ سال برآورد شد و بیشترین میزان آن در بین شیرخواران ۹ تا ۱۱ ماهه بود.^۱ این بیماری نسبت به جمعیت جهانی شیوع کمتری در خاورمیانه دارد و اکثر موارد ابتلا مربوط به کشور ایران و ترکیه است که البته آمار قابل اعتمادی در این خصوص در دسترس نیست.^۲ شیوع بیماری کاوازاکی با پاندمی کووید ۱۹ تغییری نداشته است؛^۳ اما عارضه میوکاردیت در بیماری کاوازاکی در دوران پاندمی کووید شدیدتر از قبل بوده است.^۴ همچنین بیماری کاوازاکی در این دوران عوارض شدیدتری برجای گذاشته است.^۵ به منظور کاهش عوارض کرونری بهتر است تشخیص بیماری در ده روز اول گذاشته شده و به طور ایده‌آل تا ۷ روز از شروع تب، درمان آغاز گردد.^۱ پنج کرایتریای

بالینی اصلی بیماری کاوازاکی شامل: (۱) پرخونی دوطرفه غیراگروداتیو ملتحمه بدون درگیری لیمبوس، (۲) اریتم مخاط دهان و حلق و زبان توت‌فرونگی و لب‌های سرخ و ترک‌خورده، (۳) تورم و ایندوراسیون و اریتم دست‌ها و پاها، (۴) راش به اشکال مختلف و (۵) لنفادنوپاتی غیرچرکی گردنی (معمولاً یک طرفه و با سائز بیشتر از ۱/۵ سانتی‌متر) است. در صورتی که بیمار علائم کمتر از ۴ مورد همراه با تب طول کشیده داشته باشد؛ تشخیص کاوازاکی آتیپیک خواهد بود.^۱ شیوع عوارض قلبی در کاوازاکی آتیپیک کاوازاکی کامل است.^۶ احتمالاً علت این موضوع تشخیص دیر هنگام بیماری است.^۷ اکثر بیماران مبتلا به آنوریسم کرونری در بدو تشخیص که همزمان با IVIG درمان کورتیکواستروئید نیز دریافت کرده باشند؛ شانس کمتری برای پیشرفت سائز آنوریسم دارند.^۸ از تشخیص‌های افتراقی مهم این بیماری MIS-C (سندرم التهابی مولتی سیستمیک در کودکان ناشی از کووید ۱۹) است. معیارهای MIS-C براساس پروتکل کشوری کووید شامل: سن زیر ۱۹ سال، تب بالای ۳۸ درجه برای بالای ۲۴ ساعت، شواهد درگیری

برای جلوگیری از بروز عوارض ثانویه ناشی از آنوريسم کرونری آسپرین با دوز ضد انعقاد و وارفارین به شرط INR نیز در رژیم درمانی گنجانده شد. اکوی فالوآپ دو روز بعد تکرار شد که نتایج مشابه بدون پیشرفت ضایعات گزارش شده بود. در اکوکاردیوگرافی هفته بعد رگورژیتاسیون میترال از بین رفته بود؛ اما عروق کرونری RCA و LCA در حداکثر دیامتر خود به ترتیب تا ۹ و ۴ میلی‌متر رشد کرده بودند. با توجه به پاندمی کووید ۱۹ و احتمال مواجهه با سندرم التهاب مولتی‌سیستمیک پس از کووید، به عنوان یک تشخیص افتراقی محتمل به رغم عدم وجود شرح حال مبنی بر وجود علائم ابتلا به کروناویروس یا تماس با فرد مبتلا به آن، شیرخوار از نظر سرولوژی و PCR ویروس کووید ۱۹ بررسی شد. نتایج حاصل

دو ارگان (مانند کاردیوواسکولار، درگیری تنفسی، درگیری عصبی، درگیری کلیه‌ها، هماتولوژیک، گوارشی و پوستی)، شواهد آزمایشگاهی التهاب (CRP، ESR، نوتروفیلی، لنفوپنی، افزایش فیبرینوژن، پروکلسیتونین، فریتین و دی‌دایمر، LDH، اینترلوکین ۶ و کاهش آلبومین) یا شواهد عفونت فعلی یا اخیر SARS Cov-2 با روش PCR و سرولوژی یا تست آنتی ژنی یا تماس با فرد بیمار در چهار هفته اخیر هستند.

به علت بروز آنوريسم ژانت به عنوان یک عارضه جدی و قابل پیشگیری در بيماری که مبتلا به تب و مختصر التهاب لب است و همچنین تشخیص بالینی دشوار این بيماری که منجر به تشدید عوارض به علت تاخیر در شروع درمان می‌شود؛ این مورد برای گزارش انتخاب شد تا تاکید بیشتری بر شک بالینی قوی به این بيماری در بین بيماری‌های تب‌دار به منظور کاهش عوارض آن شده باشد.

معرفی بیمار

بیمار شیرخوار دختر ۱۸ ماهه‌ای است که مهر ۱۴۰۰ با شکایت تب طول کشیده در مرکز آموزشی درمانی طالقانی گرگان بستری شد. تب از دو هفته قبل از بستری بدون همراهی با علائم و نشانه‌های سیستم گوارشی، ادراری، تنفسی آغاز شده بود. عدم بهبودی منجر به پیگیری بیشتر بیمار می‌شود. تب طول کشیده و مختصر کونژنکتیویت و ترک خوردگی لب‌ها تشخیص آنتیبیوتیکال کاوازاکی را در صدر جدول تشخیص افتراقی‌ها قرار داد. بستری به منظور رد بيماری کاوازاکی به عنوان اولین اقدام تشخیصی برای بیمار انجام شد. در آزمایشات اولیه به عمل آمده نرخ سدیمانتاسیون گلوبول‌های قرمز (ESR) برابر با ۱۵۰ گزارش گردید که اگرچه غیراختصاصی است؛ اما به نفع بيماری کاوازاکی محسوب می‌شود. سایر آزمایشات بیمار شامل موارد زیر بود.

WBC 12300 (poly 63 – lymph 37), PLT 557000 (next: 886000), Hb 16.9 (next: 9.2), CRP +3, AST 31, ALT 12, UA (WBC 6-7), Alb 4, BC negative, NL electrolyte

براساس گزارش سال ۲۰۱۷ انجمن قلب آمریکا، تشخیص علمی بيماری کاوازاکی در مطالعه قلبی با رویت گشادشدگی عروق کرونر بیشتر مساوی ۱۰ انحراف معیار یا وجود قطر بزرگتر مساوی از ۸ میلی‌متر گذاشته می‌شود.^۱ در مطالعه اکوکاردیوگرافیک اولیه وضعیت قلبی عروقی بیمار همخوان با کرایتریای تشخیصی قلبی بيماری کاوازاکی یافت شد و ژانت آنوريسم و اکتازی در عروق کرونری (LCA 7mm و RCA 4mm) همراه با رگورژیتاسیون دریچه میترال گزارش گردید (شکل‌های ۱ و ۲).

با تایید تشخیص، بیمار تحت درمان همزمان با IVIG و متیل‌پردنیزولون قرار گرفت که نسبت به درمان با هرکدام به تنهایی اثربخشی بیشتری در جلوگیری از بروز عوارض قلبی دارد. همچنین



شکل ۱: فاصله مارک شده از شريان کرونر چپ توجه کنید.



شکل ۲: به رگورژیتاسیون دریچه میترال توجه کنید.

به نفع وجود ایمنی قلبی بدون شواهدی از عفونت فعلی بود که نمی‌تواند رد کننده سندرم التهاب مولتی سیستمیک پس از کووید

۸۷ روز با میانه‌ی ۳۵ روز بوده است و زمان پسرقت این ضایعات از ۴۱ تا ۳۸۶ روز با میانه ۱۳۶ روز برآورد شده است.^{۱۲} در طی بستری و بررسی مجدد نیز بیمار شواهد پیشرفت ضایعات را در عروق کرونر نشان داد. اگرچه رگورژیتاسیون دریچه میترال از بین رفته بود که می‌تواند در زمینه بهبود میوکاردیت در پاسخ به درمان یا عبور از فاز حاد بیماری باشد. این امر می‌تواند نشانه‌ای از وجود شباهت متعدد بین علایم و نشانه‌های بالینی و آزمایشگاهی بیماری کاوازاکی آتپیکال و سندرم التهابی مولتی سیستمیک در کودکان (MIS-C) باشد.

یک دسته‌بندی آنوریسم‌های کرونری بر اساس بیشترین قطر آنوریسم است که آنوریسم‌های بیشتر از ۸ میلی‌متر را ژانت، بین ۸ و ۶ میلی‌متر را متوسط و کمتر از ۶ میلی‌متر را کوچک دسته‌بندی می‌کنند که خطر حوادث قلبی عروقی با افزایش سایز آنوریسم افزایش می‌یابد.^{۱۳} حداکثر قطر عروق کرونر RCA و LCA به ترتیب برابر با ۹ میلی‌متر و ۴ میلی‌متر شده بود که در طبقه ژانت آنوریسم قرار گرفته و پیشگویی کننده عوارض احتمالی شدید در این بیمار به رغم اتخاذ درمان و بروز شواهد پاسخ به درمان است.

نتیجه‌گیری

بیماری کاوازاکی به عنوان یک تشخیص کمتر شایع در خاورمیانه است که می‌تواند با تب و علایم نامحسوس در معاینه بروز پیدا کند. این بیماری نیازمند توجه ذهنی مستمر کادر درمان است. چرا که عوارض شدید بیماری در صورت تشخیص و درمان دیررس بار فردی و اجتماعی سنگینی را بر پیکره سلامت وارد می‌سازد.

تشکر و قدردانی

بدین وسیله از جناب آقای دکتر امیرحسین محمدشفیق به خاطر همکاری صمیمانه، تشکر می‌نماییم. تعارض منافی بین نویسندگان وجود ندارد.

References

- Kliegman RM, Stanton B, Geme JS, Schor NF. Nelson Textbook of Pediatrics Elsevier. 20th Ed. Amsterdam: Elsevier. 2017; p: 1209.
- Lin MT, Wu MH. The global epidemiology of Kawasaki disease: Review and future perspectives. *Glob Cardiol Sci Pract*. 2017 Oct; 2017(3): e201720. DOI: 10.21542/gcsp.2017.20
- Ono R, Hasegawa D. Prevalence and characteristics of Kawasaki disease before and during the COVID-19 pandemic. *World J Pediatr*. 2021 Apr; 17(2): 215-17. DOI: 10.1007/s12519-021-00412-5
- Toubiana J, Cohen JF, Brice J, Poirault C, Bajolle F, Curtis W, et al. Distinctive Features of Kawasaki Disease Following SARS-CoV-2 Infection: a Controlled Study in Paris, France. *J Clin Immunol*. 2021 Apr; 41(3): 526-35. DOI: 10.1007/s10875-020-00941-0
- Kabeerdoss J, Paliana RK, Karkhele R, Kumar TS, Danda D, Singh S. Severe COVID-19, multisystem inflammatory syndrome in children, and Kawasaki disease: immunological

باشد. در سیر بستری، پاسخ مناسب به درمان بیماری کاوازاکی و بروز شواهد آزمایشگاهی تغییر فاز حاد به فاز تحت حاد بیماری کاوازاکی (مانند ایجاد جهش حاد در شمارش پلاکت‌ها تا حد ۹۰۰ هزار و ایجاد پوسته ریزی ناخن‌ها در روز پنجم بستری) نیز تایید دیگری بر مواجهه با بیماری کاوازاکی در این بیمار بود.

بحث

بیماری کاوازاکی شایع‌ترین فرم بیماری اکتسابی قلبی در اطفال کشورهای توسعه یافته است که در سایر کشورها و تمام نژادها نیز گستردگی داشته و درگیری عروق کرونر مهم‌ترین عارضه کوتاه و بلند مدت این بیماری است.^۹

تشخیص بیماری کلاسیک کاوازاکی بر اساس کرایتریای بالینی است که نیازمند حضور پنج روز یا بیشتر تب به همراه ۴ علامت از پنج علامت اصلی کرایتریای بالینی است.^{۱۰} در نوع آتپیکال بیماری کاوازاکی بیماران مبتلا به تب پایدار هستند؛ اما در زمان بروز کمتر از ۴ علامت اصلی، داده‌های آزمایشگاهی و اکوکاردیوگرافیک در تشخیص کمک‌کننده هستند.^{۱۱} بیمار مورد گزارش نیز در فرم آتپیکال بیماری کاوازاکی قرار می‌گیرد که همین مسأله می‌تواند زمینه‌ساز وجود عوارض قلبی - کرونری شدید در بدو بستری به دنبال تاخیر در تشخیص بیماری باشد. طبق کرایتریای انجمن قلب آمریکا، طی سیر بیماری شیوع دیلاتاسیون یا آنوریسم عروق کرونر ۲۱-۴۲ درصد برآورد می‌شود که میزان آنوریسم عروق Right Coronary Artery و Left Anterior Descending به ترتیب ۸ درصد و ۲۷ درصد بوده است.^{۱۱} در نخستین بررسی اکوکاردیوگرافیک بدو تشخیص بیماران کاوازاکی، در ۴۴ درصد از آنها ضایعه عروق کرونر (۳۱ درصد اکتازی و ۱۳ درصد آنوریسم) یافت شده است.^۷ بیمار گزارش شده نیز در اولین اکوکاردیوگرافی شواهد درگیری هر دو عروق کرونر نام‌برده را نشان داده بود. زمان مورد انتظار برای رسیدن ضایعات عروقی به حداکثر قطر خود ۱۱ تا

mechanisms, clinical manifestations and management. *Rheumatol Int*. 2021 Jan; 41(1): 19-32. DOI: 10.1007/s00296-020-04749-4

- Sonobe T, Kiyosawa N, Tsuchiya K, Aso S, Imada Y, Imai Y, et al. Prevalence of coronary artery abnormality in incomplete Kawasaki disease. *Pediatr Int*. 2007 Aug; 49(4): 421-26. DOI: 10.1111/j.1442-200X.2007.02396.x
- Baer AZ, Rubin LG, Shapiro CA, Sood SK, Rajan S, Shapir Y, et al. Prevalence of coronary artery lesions on the initial echocardiogram in Kawasaki syndrome. *Arch Pediatr Adolesc Med*. 2006 Jul; 160(7): 686-90. DOI: 10.1001/archpedi.160.7.686
- Dionne A, Burns JC, Dahdah N, Tremoulet AH, Gauvreau K, de Ferranti SD, et al. Treatment Intensification in Patients With Kawasaki Disease and Coronary Aneurysm at Diagnosis. *Pediatrics*. 2019 Jun; 143(6): e20183341. DOI: 10.1542/peds.2018-3341
- Friedman KG. Kawasaki Disease. In: Lai WW, Mertens LL,

- Cohen MS. Echocardiography in Pediatric and Congenital Heart Disease: From Fetus to Adult. 3rd Ed. New Jersey: Wiley-Blackwell. 2021. DOI: 10.1002/9781119612858.ch39
10. Zhu F, Ang JY. 2021 Update on the Clinical Management and Diagnosis of Kawasaki Disease. *Curr Infect Dis Rep.* 2021; 23(3): 3. ID: covidwho-1084775
11. Kim SH, Kim JY, Kim GB, Yu JJ, Choi JW. Diagnosis of Coronary Artery Abnormalities in Patients with Kawasaki Disease According to Established Guidelines and Z Score Formulas. *J Am Soc Echocardiogr.* 2021 Jun; 34(6): 662-72.e3. DOI: 10.1016/j.echo.2021.01.002
12. Tsuda E, Hashimoto S. Time Course of Coronary Artery Aneurysms in Kawasaki Disease. *J Pediatr.* 2021 Mar; 230: 133-39.e2. DOI: 10.1016/j.jpeds.2020.12.004
13. Tsuda E, Tsujii N, Hayama Y. Cardiac Events and the Maximum Diameter of Coronary Artery Aneurysms in Kawasaki Disease. *J Pediatr.* 2017 Sep; 188: 70-74.e1. DOI: 10.1016/j.jpeds.2017.05.055