

## Une artère collatérale majeure aorto-pulmonaire associée à une persistance du canal artériel

### *Major Aorto-Pulmonary Collateral Arteries associated with patent ductus arteriosus*

Randimbirina ZL<sup>1\*</sup>, Rajaobelison T<sup>2</sup>, Randrianandrianina HF<sup>1</sup>, Mampiadana ML<sup>2</sup>, Miandrisoa RM<sup>3</sup>,  
Ravaoavy H<sup>3</sup>, Rajaonanahary TMA<sup>2</sup>, Rakotoarisoa AJC<sup>2</sup>

1. Service Bloc de Chirurgie Cardiaque, Centre Hospitalier de Soavinandriana, Antananarivo
2. Service de Chirurgie Vasculaire, CHU Joseph Ravoahangy Andrianavalona, Antananarivo
3. Service des Maladies Cardio-Vasculaires, Centre Hospitalier de Soavinandriana, Antananarivo

\*Auteur correspondant : Randimbirina Zakarimanana Lucas

lucaszakarimanana@gmail.com

#### RESUME

**Introduction :** Une artère collatérale majeure aorto-pulmonaire est une entité clinique malformative cardiaque rare, souvent associée à d'autres malformations cardiaques. Peu de cas d'association d'une artère collatérale majeure aorto-pulmonaire à une persistance du canal artériel était rapporté dans la littérature. Notre objectif est de rapporter ce cas rare et de sensibiliser les chirurgiens du risque hémorragique lors de la dissection du canal artériel.

**Observation :** Un garçon, âgé de 4 ans, né à terme, a un antécédent de bronchite à répétition. L'examen clinique montre un enfant hypotrophique, un souffle continu 3/6 et un éclat de B2 au foyer pulmonaire. L'écho-doppler cardiaque montrait une image de persistance du canal artériel de 5mm de diamètre, un shunt gauche-droit avec hyperdébit pulmonaire, une hypertension artérielle pulmonaire moyenne et une dilatation des cavités gauches cardiaques. L'enfant était opéré pour une fermeture du canal artériel par une chirurgie conventionnelle. En peropératoire, une artère collatérale majeure aorto-pulmonaire était découverte fortuitement rendant difficile la dissection du canal artériel. Le canal artériel était clampé et suturé après isolement de l'artère collatérale majeure aorto-pulmonaire. Une décision d'abstention chirurgicale était prise face à l'artère collatérale majeure aorto-pulmonaire. La suite opératoire était simple.

**Conclusion :** L'association d'une artère collatérale majeure aorto-pulmonaire à la persistance du canal artériel est une entité clinique rare, rendant parfois difficile la chirurgie de fermeture du canal artériel persistant.

**Mots-clés :** Artère collatérale ; Échocardiographie ; Pédiatrie ; Persistance du canal artériel.

#### ABSTRACT

**Introduction:** Major aorto-pulmonary collateral artery is a rare clinical entity of cardiac malformation, often associated with other cardiac malformations. Few cases of major aortopulmonary collateral artery associated with patent ductus arteriosus have been reported in the literature.

**Observation:** A 4-year-old boy, born at term, with a history of recurrent bronchitis. Clinical examination showed hypotrophic children, with systolic murmur 3/6 and loud P2 at pulmonic region (left parasternal, intercostal space 2). Cardiac doppler ultrasound showed 5 mm of patent ductus arteriosus with left-right shunt cardiac and pulmonary hyperflow, moderate pulmonary hypertension and dilated cardiopathy. The boy underwent conventional surgery to close the patent ductus arteriosus. In peroperative time, major aortopulmonary collateral artery has been discovered, making difficult ductus arteriosus dissection. The ductus arteriosus was clamped and sutured after isolation of the collateral artery. Surgical abstention was taken against the major aorto-pulmonary collateral artery. The postoperative course was simple.

**Conclusion:** The association between major aorto-pulmonary collateral artery and patent ductus arteriosus is a rare clinical entity, making sometimes difficult the surgical procedures to close patent ductus arteriosus.

**Keywords:** Collateral Artery; Echocardiography; Pediatrics; Patent ductus arteriosus.

## INTRODUCTION

---

Les artères collatérales majeures aorto-pulmonaires majeures ou Major aorto-pulmonary collateral arteries (MAPCAs) sont des vaisseaux congénitaux qui proviennent de l'aorte ou de ses branches de premier ordre et sont connectés de manière distale au système vasculaire artériel pulmonaire, fournissant ainsi un flux sanguin pulmonaire [1]. Ce sont des malformations cardiaques congénitales rares. La persistance du canal artériel (PCA) est l'une des malformations cardiaques congénitales les plus courantes, représentant 5 à 10% de toutes les cardiopathies congénitales chez les nourrissons nés à terme [2]. Les MAPCAs sont souvent associées à d'autres pathologies malformatives cardiaques. Peu de cas d'association d'une persistance du canal artériel à une MAPCAs était rapportée dans la littérature.

Nous rapportons un cas d'une MAPCAs associée à une persistance du canal artériel.

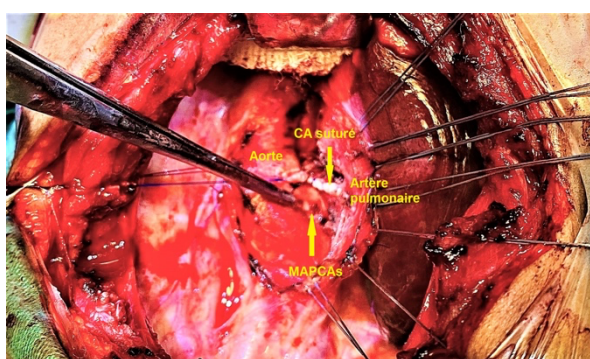
## OBSERVATION

---

Il s'agissait d'un garçon, âgé de 4 ans, né à terme, vacciné selon le Programme Elargi de Vaccination (PEV), ayant un antécédent de bronchite à répétition, diagnostiqué comme une persistance du canal artériel. Il était référé dans notre service pour une fermeture chirurgicale de la persistance du canal artériel. A son admission, l'examen clinique montrait un enfant hypotrophique, mesurant 99 cm, pesant 13 kg avec une tachycardie à 120 battements/min et une SaO<sub>2</sub> à 98% en air ambiant. L'inspection montrait une

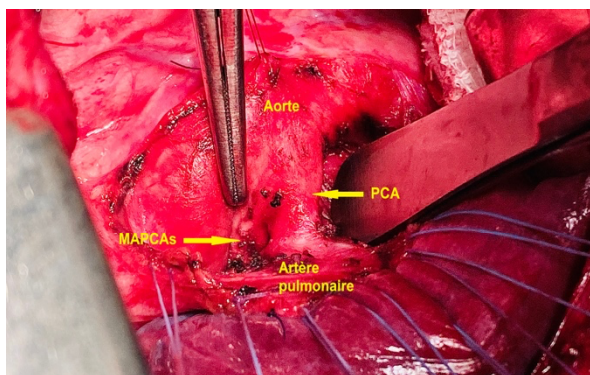
petite déformation de la paroi thoracique, une conjonctive bien colorée et une absence d'œdème des membres inférieurs. La palpation montrait des pouls amples, sans hépatomégalie. L'auscultation cardiaque montrait un bruit du cœur régulier avec un souffle continu 3/6 avec un éclat de B2 au foyer pulmonaire. L'auscultation pulmonaire montrait un murmure vésiculaire bien symétrique. Le reste de l'examen était sans particularité. L'électrocardiogramme (ECG) montrait un rythme sinusal irrégulier avec une extrasystole auriculaire. La radiographie du thorax montrait une cardiomégalie. L'écho-doppler cardiaque montrait une PCA de 5 mm de diamètre, un shunt gauche-droit avec hyperdébit pulmonaire, une Hypertension Artérielle Pulmonaire (HTAP) moyenne et une dilatation des cavités gauches cardiaques. Les bilans biologiques préopératoires étaient normaux. La fermeture de la PCA était faite par une chirurgie conventionnelle avec une thoracotomie postéro-latérale gauche au 4<sup>ème</sup> Espace Inter-Costal Gauche (EICG). A l'exploration, une MAPCAs de type II (branche issue directement de l'aorte thoracique descendante) était découverte fortuitement lors de la dissection du canal artériel, siégeant près de l'abouchement aortique du canal artériel persistant rendant difficile la dissection de ce dernier (photo 1). La palpation de la MAPCAs ne montrait pas de thrill contrastant avec la PCA qui présentait de thrill. Après dissection, le canal artériel était clampé et suturé en surjet de type Blalock en laissant en place la MAPCAs (photo 2). Un drain thoracique CH20 était mis en place dans la plèvre gauche avant la fermeture pleurale.

Le traitement postopératoire comportait une antibioprofylaxie et un antalgique. Le drain thoracique était retiré à 48 heures postopératoire après un contrôle radiologique. La suite opératoire était simple. La durée d'hospitalisation était de 6 jours. Un contrôle chez un cardiopédiatre avec une surveillance échographique a été faite avant la sortie, puis à 1 mois après l'intervention.



**Photo 1 :** Image peropératoire de la MAPCAs type II associée à une PCA.

**Source :** Service Bloc de Chirurgie Cardiaque, Centre Hospitalier de Soavinandriana, Antananarivo



**Photo 2 :** Image peropératoire après la suture du canal artériel laissant en place la MAPCAs

**Source :** Service Bloc de Chirurgie Cardiaque, Centre Hospitalier de Soavinandriana, Antananarivo

## DISCUSSION

Les MAPCAs sont des pathologies malformatives cardiaques congénitales rares, souvent associées à d'autres anomalies cardiaques complexes. Elles sont dues à la non régression des connexions embryologiques systémiques-pulmonaires à partir de l'aorte ou ses branches au système vasculaire artériel pulmonaire [1].

Les MAPCAs sont souvent associées à des anomalies complexes cardiovasculaires notamment une atrésie pulmonaire [3, 4] et une tétralogie de Fallot [5]. La forme associée à un canal artériel persistant est rarement rapportée dans la littérature. Certains auteurs avaient déjà rapporté cette forme associée à un canal artériel persistant comme Birnbacher R *et al.* [6] et Güvenç O *et al.* [7]. Par ailleurs, certains auteurs avaient rapporté un cas isolé de MAPCAs [8].

Du point de vue anatomique, les MAPCAs sont classées en 3 types selon l'origine des artères collatérales : les branches provenant de l'artère bronchique (type I), les branches issues directement de l'aorte (type II) et les branches indirectes de l'aorte via ses principales branches comme l'artère sous-clavière, l'artère cœliaque et l'artère coronaire (type III) [1]. La forme de notre cas est une MAPCAs type II.

Le diagnostic d'une MAPCAs est quasiment difficile. Elles sont souvent découvertes fortuitement, soit à l'occasion d'une imagerie médicale pour raison d'exploration d'autres pathologies malformatives congénitales associées, soit en peropératoire à l'occasion d'une chirurgie de correction des malformations associées. La découverte prénatale est rarement rapportée dans la littérature [5]. Elles sont

fréquemment découvertes de façon fortuite en peropératoire au cours d'une chirurgie d'une atrésie pulmonaire associée à un défaut septal ventriculaire (53% à 73%) [9]. Pour le présent cas rapporté, la découverte était fortuite en peropératoire à l'occasion d'une chirurgie de fermeture d'un canal artériel persistant.

Actuellement, l'angiographie conventionnelle est l'examen de référence diagnostique d'une MAPCAs. Elle permet de confirmer le diagnostic, de préciser l'anatomie des collatérales et d'évaluer l'importance du flux sanguin à travers les artères collatérales [1, 10, 11]. Néanmoins, certains auteurs ont rapporté des cas diagnostiqués à l'écho-doppler cardiaque [8] ou à l'échographie fœtale [5].

Plusieurs structures anatomiques similaires méritent d'être éliminées lors de l'évaluation diagnostique à l'angioscanner thoracique d'une MAPCAs comme le canal artériel persistant, l'hypertrophie de l'artère bronchique, la malinosculation type B, les artères collatérales acquises et les collatérales veineuses [1]. La superposition anatomique de la MAPCAs type II au canal artériel persistant dans notre cas pourrait expliquer la difficulté de découverte à l'écho-doppler cardiaque préopératoire du diagnostic.

En absence de traitement, les MAPCAs peuvent évoluer vers une insuffisance cardiaque congestive, une infection des voies respiratoires inférieures et des complications thromboemboliques fatales [12, 13].

Le traitement chirurgical de référence d'une MAPCAs est actuellement la fermeture percutanée par coil, indiquée en cas de formes élargies [14, 15]. Un traitement par embolisation

des collatérales est indiqué pour les formes étroites [1]. En cas de découverte peropératoire, les collatérales visualisées peuvent être directement traitées par ligature. Dans notre cas, la MAPCAs était laissée en place par souci de ligaturer cette forme élargie. Le pronostic est bon même si on n'a pas ligaturé la collatérale.

## CONCLUSION

L'association d'une MAPCAs à une PCA est une entité clinique rare. Son diagnostic à l'imagerie est difficile à cause de la situation anatomique très proche. Cette association pourrait être à l'origine d'une hémorragie cataclysmique d'où l'intérêt d'une grande prudence lors de la dissection du canal artériel.

## REFERENCES

1. Alex A, Ayyappan A, Valakkada J, Kramadhari H, Sasikumar D, Menon S. Major Aortopulmonary Collateral Arteries. *Radiol Cardiothorac Imaging* 2022;4(1):e210157.
2. Dice JE, Bhatia J. Patent Ductus Arteriosus: An Overview. *J Pediatr Pharmacol Ther* 2007;12:138–46.
3. Ozden K, Mutlu B, Kahveci G, Bayrak F, Saltik L, Guran S *et al.* Pulmonary atresia and ventricular septal defect with MAPCAs associated with right sided endocarditis and paradoxical embolic event. *Eur J Echocardiogr* 2007;8:292–5.
4. Mainwaring RD, Patrick WL, Hanley FL. Surgical Management of Pulmonary Atresia With Ventricular Septal Defect and Major Aortopulmonary Collateral Arteries: Part I—Anatomy, Physiology, and Palliative Procedures. *Oper Tech Thorac Cardiovasc Surg* 2019;24:38–55.
5. Satzer M, Hodzic E, Argilla M, Choueiter N. Fetal Diagnosis of Tetralogy of Fallot, Major Aortopulmonary Collateral Arteries, and an “Inverted” Pulmonary Valve Causing a Circular Shunt. *CASE Cardiovasc Imaging Case Rep* 2020;4:356–61.

6. Birnbacher R, Proll E, Kohlhauser C, Marx M, Schlemmer M, Dobner M *et al.* Echocardiographic evidence of aortopulmonary collaterals in premature infants after closure of ductus arteriosus. *Am J Perinatol* 1998;15(10):561–5.
7. Güvenç O, Ödemiş E, Saygı M, Demir İH. Rare combination and transcatheter treatment during single session in an infant: Patent ductus arteriosus and major aortopulmonary collateral artery concordance. *Turk Kardiyol Dem Ars* 2016;44:606–8.
8. Patra S, Srinivas SK, Agrawal N, Jayaranganath M. Isolated major aortopulmonary collateral artery in an infant presenting with recurrent lower respiratory tract infection. *BMJ Case Rep* 2013;2013:1-2.
9. Ryan JR, Moe TG, Richardson R, Frakes DH, Nigro JJ, Pophal S. A novel approach to neonatal management of tetralogy of Fallot, with pulmonary atresia, and multiple aortopulmonary collaterals. *JACC Cardiovasc Imaging* 2015;8:103–4.
10. Adamson GT, McElhinney DB, Zhang Y, Feinstein JA, Peng LF, Ma M *et al.* Angiographic Anatomy of Major Aortopulmonary Collateral Arteries and Association With Early Surgical Outcomes in Tetralogy of Fallot. *J Am Heart Assoc* 2020;9(24):e017981.
11. Martins L, Oliveira RS, Silva P, Marinho J, Sousa G, Castela E. Giant major aortopulmonary collateral artery: A rare cause of heart murmur in newborns. *Rev Port Cardiol Engl* 2014;33:483–5.
12. Migdał A, Żuk M, Zubrzycka M, Rewers B, Koleśnik A, Brzezińska-Rajszyś G. Fatal thromboembolism of major aortopulmonary collateral arteries. *Polish Heart Journal* 2019;77:574–5.
13. Hsu JY, Wang JK, Lin MT, Wu ET, Chiu SN, Chen CA *et al.* Clinical Implications of Major Aortopulmonary Collateral Arteries in Patients With Right Isomerism. *Ann Thorac Surg* 2006;82:153–7.
14. Sadiq N, Ullah M, Mahmoud A, Akhtar K, Younis U. Perioperative Major Aortopulmonary Collateral Arteries (MAPCAs) Coiling in Tetralogy of Fallot Patients. *J Cardiol Curr Res* 2015;3(6):1–6.
15. Amoozgar H, Edraki MR, Mehdizadegan N, Naghshzan A, Arabi H. Coil Closure of Isolated Aortopulmonary Collaterals in an Infant Presenting with Recurrent Lower Respiratory Tract Infection. *Iran J Pediatr* 2018;28(6):e64292.