

症 例

食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1例

東京女子医科大学消化器病センター外科
東京医科歯科大学第1外科*

手塚 秀夫 井手 博子 押淵 英晃 村田 洋子
奥島 憲彦 杉山 明德 室井 正彦 山田 明義
羽生富士夫 遠藤 光夫*

A CASE OF CONGENITAL ESOPHAGO-BRONCHIAL FISTULA
WITH DIVERTICULUM IN THE ADULT

Hideo TEZUKA, Hiroko IDE, Hideaki OSHIBUCHI,
Yoko MURATA, Norihiko OKUSHIMA, Akinori SUGIYAMA,
Masahiko MUROI, Akinori YAMADA, Fujio HANYU
and Mitsuo ENDO*

Division of Surgery, Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College
First Department of Surgery, Tokyo Medical and Dental University, School of Medicine*

索引用語：食道憩室，先天性食道気管支瘻

はじめに

食道気管支瘻は成因により先天性と後天性とに分類されている¹⁾。成人の食道気管支瘻の大部分は後天性で、外傷や炎症、特に悪性腫瘍に合併するものが多い、いわゆる先天性のものはまれとされている。先天性とみなされる症例は1965年に Braimbridge²⁾が23例を集計している。本邦では1981年に倉重ら²²⁾が90例を集計し、報告しているが、さらに食道憩室を伴った成人の先天性食道気管支瘻は極めてまれで、われわれの集計しえた限り本邦では20例の報告^{21)~22)}があるにすぎない。今回われわれは食道憩室を伴った成人の先天性食道気管支瘻の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：56歳，男性。
主訴：前胸部痛，背部痛。
家族歴：母，兄弟に肺結核症の既往がある。
既往歴：特記すべきことはない。
現病歴：小児期に1年に数回の発熱があり，18歳の

時急性肺炎に罹患した。27歳の時には肺結核症の疑いで約3カ月入院し，内科的治療を受けた。29歳の時再び急性肺炎に罹患した。その後時々前胸部痛，背部痛，微熱が出現することがあったが，放置していた。昭和59年12月他医にて精査のため上部消化管透視を受け，縦隔に穿孔した食道憩室を疑われ，当科入院となった。

入院時現症：体格中等度，栄養良好。胸部に打聴診上異常所見なく，腹部その他にも理学的に特記すべき所見はない。

血液一般および生化学検査所見：赤血球数 $517 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，血色素 15.5g/dl ，ヘマトクリット値 46.4% ，白血球数 $5,500/\text{mm}^3$ ，血清総蛋白 7.9g/dl ，GOT 28 KU，GPT 38KU，尿素窒素 21.8mg/dl で特に異常を認めない。

肺機能検査：%肺活量 96% ，1秒率 76% 。

心電図所見：異常なし。

ツベルクリン反応：陽性。

胸部X線所見：右下肺野に慢性気管支炎を思わせる限局性の浸潤性陰影を認めたが，他に結核および悪性腫瘍を疑わせる所見は認められなかった。

食道造影所見：胸部中部食道右側に直径約2cmの憩室があり，憩室と右下肺野の右上一下葉気管支(B₆)

<1987年2月18日受理>別刷請求先：手塚 秀夫
〒400 甲府市朝日3-8-31 社会保険山梨病院外科

図1 食道造影所見

憩室より右 B₆と思われる気管支へのバリウムの流出を認める。



図2 手術所見

右開胸。左方が頭側で、右肺を前下方へ圧排。E：食道、L：肺、矢印：瘻管を示す。

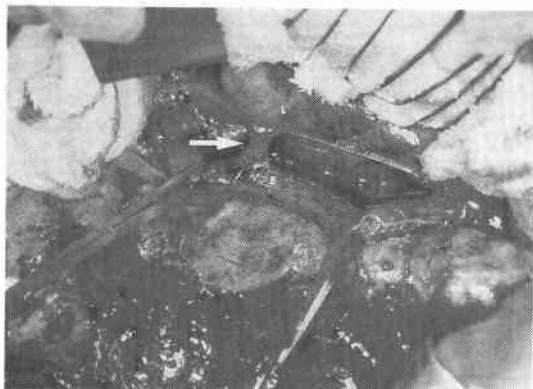


図3 切除標本の病理組織所見

左側：多列線毛上皮，右側：重層扁平上皮，HE染色，5×4倍



と思われる気管支との間に交通が認められた(図1)。

食道鏡所見：上門歯列から32~34cmの右側壁に約1/5周の憩室があり、その底部に瘻管を認めた。瘻管口は吸気時には開き、呼気時には閉じるという呼吸性の開閉をしていた。

気管支鏡所見：あらかじめ食道憩室にトルイジンブルーを注入した後に気管支鏡検査を行ったところ、右B₆から同色素の流出を認めた。

以上の所見より憩室を伴った食道気管支瘻と診断

し、手術施行した。

手術所見：右第5肋間、前側方切開にて開胸。右下葉全体に壁側胸膜との線維性癒着をみた。これを剝離すると病変部は容易に露出され、食道憩室と右B₆と思われる部との間に径3mm、長さ約2cmの索状物を認めた。この周囲には炎症性変化はなく、リンパ節の炎症もなかった。また結核性病変および悪性所見を認めなかった。食道憩室を含めてこの索状物を切除し、肺側端および食道壁を2層に縫合閉鎖した(図2)。

切除標本の病理組織学的所見：索状物は瘻管を形成していた。この瘻管内面は食道側は重層扁平上皮で筋層を有し、気管支側は多列線毛上皮から成り、両者に連続性の移行が見られた(図3)。

術後経過は良好で、術後22日目に退院した。

考 察

先天性食道気管支瘻の90%以上は食道閉鎖を伴っており、栄養障害や重篤な呼吸器合併症により乳幼児期に何らかの外科的治療を受けるが、不幸な転帰をとるものが大部分である⁶⁾。食道閉鎖を伴わない通常H型(Gross E型²³⁾)と呼ばれるものは1~3%に過ぎないが²⁴⁾、この型も新生児期に発見されることが多く、成人期以降になって発見される場合はさらに極めて少ない。このような成人の症例はH型内でも瘻管が細くかつ主気管支以下の末梢側に交通のあるものか、または瘻管が何らかの原因で閉鎖されていたものと考えられている²⁵⁾。以下特に成人の先天性食道気管支瘻について述べる。

臨床症状としては、その原因から考えて明らかな様に飲食時の咳嗽、嚥下障害、喀痰などである。食事に伴う咳嗽は本症に特異な症状であり、比較的病期期間も長く、また一定の体位においてある程度この症状を軽減あるいは予防出来る場合が多いとされている²⁶⁾。例えば食道右壁から右肺への瘻管の場合には、左側臥位で飲食させれば咳嗽が少ない。逆にこのことで食道側の瘻管開口部の位置を推定出来る。臨床症状の発現が遅れることもまれではなく、これは瘻管の太さにも関係してくることである。この症状発現遅延の機序についてJacksonら²⁷⁾は瘻管の入口に膜様物が存在し、後日破れて瘻管が交通するためとしている。

治療についてはなるべく早い時期に外科的に憩室と瘻管を切除して瘻管閉鎖をはかるのが良いとされている。手術時肺切除を付加するかどうかの適応については、2次性の気管支拡張症や肺化膿症などを有しているものに関しては罹患肺を同時に切除する方が最良と考えられている²⁵⁾。しかし矢島ら⁸⁾は肺切除の適応は十分に慎重に決定すべきで安易に実施すべきではないと強調し、その理由としてこれらの症例にみられる肺炎は瘻管が存在した状態でも保存的に治癒させるものであるとの、瘻管閉鎖後にはさらに容易にコントロールすることが出来るからであると述べている。

成人の場合先天性か後天性かの鑑別は必ずしも容易ではなく、大多数の症例ではそれまでの臨床経過、術前検査所見、術中所見および切除標本の病理組織学的

所見から総合的に判断することになる。Brambridge²⁾は先天性食道気管支瘻を形態学的所見から、I. wide necked diverticulum with inflammatory fistula at tip, II. simple fistula, III. fistula with cyst, IV. fistula with sequestrated segmentの4型に分類している。さらにBrunner²⁸⁾は先天性とみなす判定基準として、①手術時瘻管周囲および食道周囲に炎症所見のないこと、②瘻管にリンパ節の癒着のないこと、③組織学的に瘻管は正常粘膜を有し、粘膜筋板を所有していることの3点を挙げている。また唐沢ら³⁾は、①幼少時より水分摂取の際激しい咳嗽発作があり、肺炎をしばしば繰返したことがあり、思春期以後でも前記の症状が繰返されること、②手術時瘻管周囲にリンパ節の癒着あるいは炎症所見を認めず、瘻管の露出はきわめて容易であること、③組織学的に瘻管は食道固有の粘膜上皮と筋層を保有しており、瘻管そのものには炎症所見がなく、あるいはあってもきわめて軽度で食道粘膜上皮から気管支粘膜上皮への移行像が認められること、④Brambridgeの4型に属するものとし、さらに③④は先天性であることの必要十分条件であるが、これらを欠く場合には①②の総合的判断によるべきであるとしている。本症例は上記の唐沢ら³⁾およびBrunner²⁸⁾の条件を満たしているため先天性と判断した。

先天性の成因は胎生期5~6週での食道気管の分離不全とされている²⁵⁾が、BrambridgeのI型における瘻管は全く先天性のものとは考えられないようである。すなわち木村ら⁹⁾は食道憩室と気管支との瘻管形成の機序として先天性の要因ばかりでなく、炎症などの後天性要因も多分に関与している可能性があるとして述べている。すなわち食道憩室は先天的に存在するものであるが、これと気管支との間の瘻管形成は先天性の場合と後天性の場合が考えられる。

したがって周囲の炎症所見はあまり判断の根拠にならないと考える。Brambridge²⁾も先天性の分類の中でI型の食道憩室に続く瘻管は炎症性のもので定義している。それ故先天性か後天性かの判定には瘻管の炎症所見のないことよりも、病理組織学的に食道粘膜から気管支粘膜への移行が認められるという瘻管壁の組織構造を重要視したい。われわれの症例における瘻管は先天性のものと考えられるが、Brambridge²⁾の分類に当てはめればI型ということになる。このような症例は本邦では20例報告されている³⁾⁻²²⁾。

おわりに

われわれは最近56歳男性の食道憩室を伴った先天性食道気管支瘻の1例を経験し、手術にて治癒せしめえたので若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第26回日本消化器外科学会総会（昭和60年7月札幌）にて発表した。

文 献

- 1) Coleman FP, Bunch GH Jr: Acquired non malignant esophagorespiratory fistula. *Am J Surg* 93: 321-328, 1957
- 2) Braimbridge MV, Keith HI: Oesophagobronchial fistula in the adult. *Thorax* 20: 226-233, 1965
- 3) 唐沢和夫, 沢田勤也, 赤嶺安貞ほか: 成人の先天性食道気管支瘻について. *日胸外会誌* 18: 51-60, 1970
- 4) 浅井貞宏, 森 巖, 神崎 清ほか: 成人非悪性食道気管支瘻の1例. *日消病会誌* 68: 633-634, 1971
- 5) 古賀昭夫, 坪井慶孝: 先天性と思われる成人食道気管支瘻の1例. *外科診療* 16: 934-939, 1974
- 6) 木村荘一, 熊谷 直, 佐藤博俊ほか: 成人における非悪性食道気管支瘻の外科治療. *抗研誌* 28: 61-68, 1976
- 7) 沢村献児, 南域 悟, 森 隆ほか: 成人の先天性食道気管支瘻の4治験例. *日胸臨* 36: 113-118, 1977
- 8) 矢島謙志, 土井 修, 鍋島秀雄ほか: 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1治療例. *日胸外会誌* 28: 1874-1881, 1980
- 9) 久米川啓, 羽生富士夫, 中村光司ほか: 成人の先天性食道気管支瘻の1治療例. *外科* 44: 738-741, 1980
- 10) 大谷洋一, 飯田富雄, 菊地友允ほか: 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1治療例. *日臨外医会誌* 43: 399-403, 1982
- 11) 田中文隆, 福岡誠吾, 沢田勤也ほか: 食道憩室及び気管支分岐異常を併った成人の先天性食道気管支瘻の治験例. *日胸外会誌* 30: 1185-1189, 1982
- 12) 池田道昭, 山根喜男, 萩原 昇ほか: 食道憩室を伴った成人の食道気管支瘻の2治療例. *日胸臨* 41: 997-1003, 1982
- 13) 正木久朗, 長田博昭, 舟木成樹ほか: 食道憩室を伴い先天性が示唆された成人食道気管支瘻の1治療例. *日胸外会誌* 30: 331, 1982
- 14) 和顔房代, 白木のい子, 木下美登里ほか: 食道憩室を伴う成人先天性食道気管支瘻の1手術例. *日胸疾患会誌* 21: 147-152, 1983
- 15) 長嶺信夫, 石川清司, 国吉真行ほか: 食道憩室を伴う成人の食道気管支瘻症例報告と本邦報告例の検討. *国療沖繩医誌* 4: 45-52, 1983
- 16) 竹内吉善, 住友伸一, 中村達雄ほか: 食道憩室を伴う気管支食道瘻の1手術例. *日胸疾患会誌* 21: 1020-1021, 1983
- 17) 中山頼和, 吉田英生, 清水信義ほか: 成人の先天性気管支瘻の1例. *岡山医会誌* 96: 227, 1984
- 18) 宇都宮高賢, 並川和男, 岡部正人ほか: 成人の食道憩室を伴う食道気管支瘻の1症例. *日臨外医会誌* 45: 309-312, 1984
- 19) 西村 寛, 磯部 真, 足達 明ほか: 成人の先天性食道気管支瘻と思われる1例. *日気管食道会報* 35: 174, 1984
- 20) 小檜山律, 宮田道夫, 稲葉直樹ほか: 憩室を伴った成人の先天性食道気管支瘻の1例. *日臨外医会誌* 12: 1596-1600, 1984
- 21) 桜井 滋, 大谷信夫, 松田正史ほか: 食道憩室を伴った成人の先天性食道気管支瘻の1例. *日胸臨* 43: 57-62, 1984
- 22) 倉重真澄, 草地位也, 加藤 治ほか: 成人の先天性食道気管支瘻の1手術例. *日胸外会誌* 33: 116-121, 1985
- 23) 古見信彦: 小児外科. 綿貫 詰, 佐藤寿雄編. 外科学 III. 東京, 日本医事新報社, 1978, p479
- 24) 岩田欣造, 平松隼夫, 堀田明男ほか: 先天性と思われる成人食道気管支瘻の1例. *外科* 46: 1566-1569, 1984
- 25) 唐沢和夫: 成人の先天性食道気管支瘻. *外科 Mook* 33: 84-92, 1983
- 26) 掛川輝夫, 武田仁良: 後天性食道気管支瘻. *外科 Mook* 33: 93-100, 1983
- 27) Jackson C, Coates GM: *The nose, Throat and Ear and their diseases*. Saunders, Philadelphia, 1929, p1124
- 28) Brunner A: *Oesophagobronchiale fisteln*. *Münch Med Wschr* 103: 2181-2184, 1961