

症例報告

2 個の食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の 1 例

練馬総合病院外科, *同 内科

横田 昌明 飯田 修平 戸嶋 暢之
宇山 一朗 渡辺 真純 五味 清英*

憩室を伴う成人の食道気管支瘻で、成因、発症においてきわめて示唆に富む 1 例を経験した。症例は68歳男性、中部食道右壁に 2 個の憩室を認める。肛側憩室より毛髪様に伸びる狭小な瘻管が、4 年間のうちにより太く拡張し、右 B₇区域枝との交通が確認される過程を偶然追跡した。外科的に瘻管を切除し治癒せしめたが、Brunner, 唐沢の診断基準より先天性のものと考えた。さらに、術中口側の憩室より肺実質に向かう索状物を認めたが、このような索状物が気道に開存して瘻管となった例、2 個の憩室から異時性に食道気管支瘻を認めた症例が報告されており、先天性食道気管支瘻の潜在的な病態ではないかと考えた。加齢に伴う組織の弾力性の消失に喫煙、飲酒、上気道感染など外的要因が加わり、瘻管壁を押し上げようと働く力が増大した結果、ある時期を境に発症、増悪してくるものと思われる。

Key words: congenital esophago-bronchial fistula, multiple esophageal diverticula

はじめに

成人の食道気管支瘻でまれに先天性と思われるものがあるが、その判定は必ずしも容易ではない^{1)~3)}。胸部中部食道の憩室から伸びる狭小な瘻管が4年間の追跡期間中に太く拡張し、右 B₇と連絡する過程を明らかにした症例を経験した。臨床経過、手術時の所見から先天性と考えているが、成因および病態に関し種々の問題点を含むと考えられるので報告する。

症 例

患者: 68歳, 男性

主訴: 咳嗽, 血痰

既往歴: 19歳時肺結核の疑いで入院精査。64歳時胃潰瘍のため、内科的治療を受けた。

家族歴: 同胞に肺結核罹患者がいる。

現病歴: 少年期より感冒様症状がしばしば出現し、16歳ごろからは血痰も認めた。19歳時4か月間入院し、肺結核の疑いありと診断されたが詳細は不明である。血痰にやや遅れて飲水時、ピーナツ摂取時に咳込むことがあったが放置していた。38歳の時にも血痰の精査目的で入院し、異常なしと診断された。64歳の時、胃潰瘍精査のため上部消化管造影 X 線検査を受け、中部

食道に2個の憩室を指摘されている。昭和63年(68歳)、5月中旬より咳嗽、血痰、心窩部痛が出現した。結核の再発を疑い、当院内科を受診し、上部消化管造影 X 線検査で食道気管支瘻と診断され、外科に転科した。

入院時現症: 身長164cm, 体重63kg, 体温35.6℃。血圧158/80mmHg, 脈拍数72/min, 整。栄養状態良好。両肺野に聴打診上異常を認めない。なお、喫煙は20歳より20~40本/日、飲酒は15歳より2合/日である。

入院時一般検査: CRP 軽度上昇の他には異常を認めない。血沈3mm/6mm, ツ反陽性、喀痰の結核菌検索は数回施行し、塗沫・培養共陰性であった。また細胞診は Class II であった。

胸部単純 X 線所見: 右下肺野の気腫性病変と肺門部から右下肺野にかけて軽度の浸潤性陰影を認めた。結核および悪性腫瘍を疑わせる所見はなかった (Fig. 1)。

上部消化管造影 X 線検査所見: 食道全長にわたり拡張、狭窄像を認めなかった。中部食道の右前壁、すなわち気管分枝部直下第7胸椎の高さ、およびこれより3cm 肛側の2か所におのおの13×10mm の憩室を認めた。昭和59年の X 線検査では肛側憩室より下方に向かう狭小な瘻管が認められたが、気管支との連絡は不明であった。4年後の昭和63年にはこれがより太く拡張して、右 B₇区域枝との交通が確認された。肺実質

Fig. 1 Chest roentgenogram showing emphysematous change and mild infiltrative shadow in the right lung. Contrast material remains at the right lower segment of the lung.

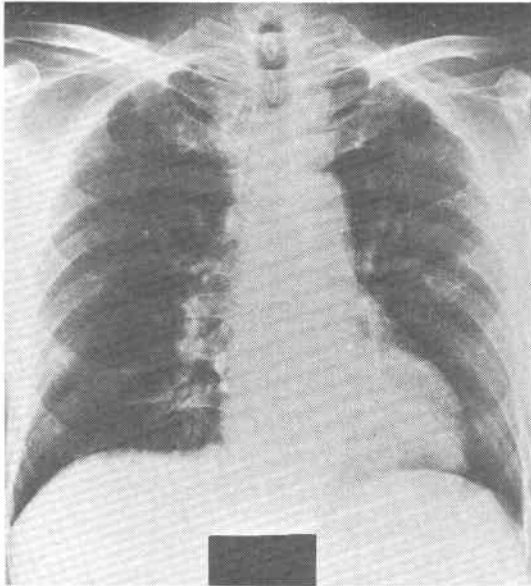


Fig. 2 (a) Esophagogram reveals a hairy fistula, originating from the distal diverticulum. (b) It has developed during four years to a thicker one which directly communicated with the right B₇.

June 18, 1984

(a)

June 17, 1988

(b)

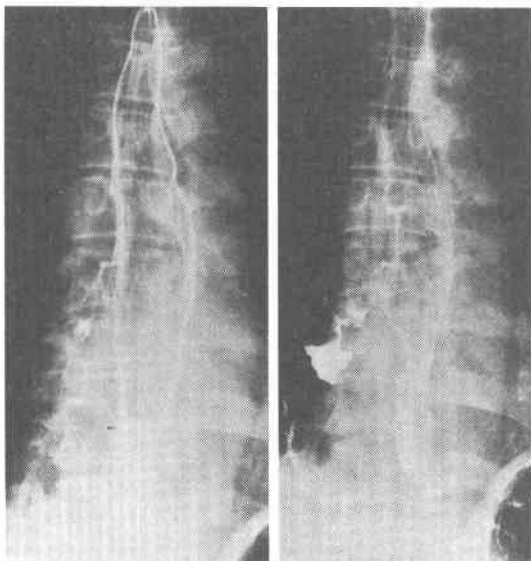


Fig. 3 (a) Esophago-fiberscopy shows a distal diverticulum, with an orifice in the right wall of the mid-esophagus. (b) Esophago-fiberscopic findings carried out four years later. Air bubble from the orifice was observed.

June 29, 1984

(a)

June 21, 1988

(b)

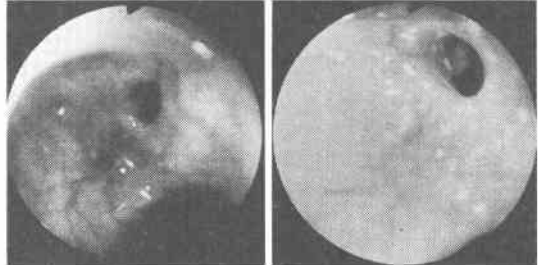


Fig. 4 Operative findings. No inflammatory changes and adhesion were observed around the fistula. The string, which was not detected by Xray examination, was also exposed (taping, right side).

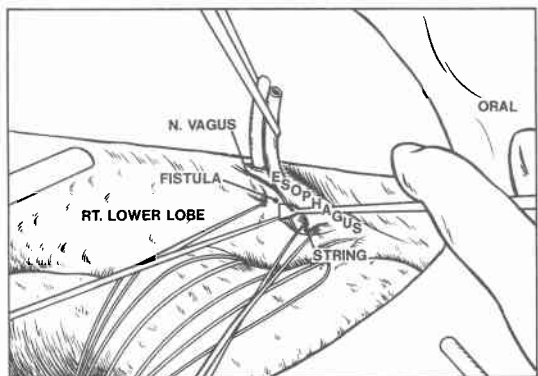
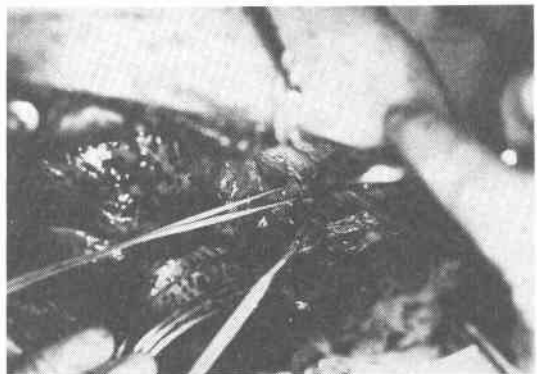
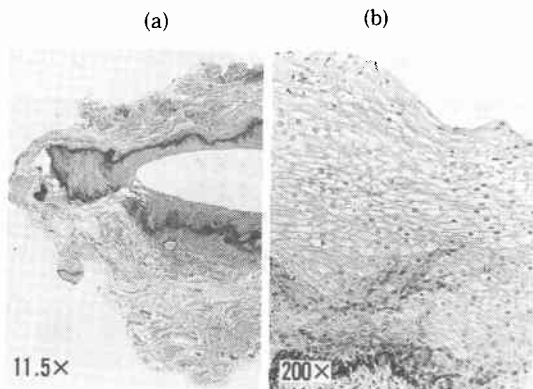


Fig. 5 Photomicrograph of the resected fistula. (a) The lumen of the fistula was covered with squamous cell and surrounded by the proper muscle layer (H&E×11.5). (b) No inflammatory change was found (H&E×200).



内の造影剤のたまりは、斜位の写真でみると、嚢胞というよりは後天的な気管支拡張によるものと思われた (Fig. 2)。

食道内視鏡所見：昭和59年に既に下方憩室の中央に瘻孔入口部と思われる深い陥凹部が認められた。今回、同陥凹部より気泡が出現し、気道との連絡が確認された (Fig. 3)。

気管支ファイバースコープ所見：右 B₇区域枝入口部に軽度の狭窄があり、周囲も浮腫状で炎症変化を呈していた。肺実質内の嚢胞様病変は不明であった。

手術所見：昭和63年7月15日、手術を施行した。右第5肋間にて開胸、中下葉の後側方の胸膜間の癒着は著明であったが、縦隔胸膜を切開し、食道を露出すると、横隔膜上6cmの食道右壁より下葉に向かう径12mmの瘻管が認められた。炎症性変化はごく軽度で、周囲の癒着、リンパ節の腫脹はなく、容易に瘻管を剝離できたので、約15mmにわたり憩室と共に切除した。また、口側の憩室からは径2mm、長さ10mmの索状物が肺実質に向かっていたため、2重に縫合結紮した (Fig. 4)。

病理組織学的所見：瘻管の内腔表層は重層扁平上皮におおわれているが、円柱上皮への移行像は切除した範囲内には認めなかった。リンパ球浸潤は軽度であり、炎症性変化に乏しく、筋層は内腔をとり囲んで内輪外縦層を保っている (Fig. 5)。

術後経過：おおむね良好であり、11日目に術後造影 X線検査を施行、異常ないため経口摂取を開始した。

32日目に退院、術後9カ月の現在自覚的に異常を認めない。

考 察

食道は胎生3～6週に前腸が喉頭気管と分離して形成されるが、この過程が障害され分離不全をきたしたものが先天性の食道気管支瘻である。大部分が出生直後に見つかるが、成人の非悪性食道気管支瘻のなかにまれに先天性と思われる症例があり、診断の根拠や発症が遅延する理由について諸説提唱されている。1961年に佐多が本邦初例の報告¹⁾をして以来、唐沢が74例 (1983年)²⁾、角村が85例 (1987年)³⁾を集計しているが、本稿では1983年以降5年間の報告例に自験例を加えた34例を先の集計と比較し、最近の傾向を検討した。

まず、性別、確定診断時の年齢は男性16例 (26～72歳)、女性16例 (30～73歳)と有意差はなく、平均年齢は51.8歳、最高齢者73歳であった。唐沢の集計では男女とも8割近くが50歳までに治療を受けており、この5年間で症例数が増加したわりには本疾患の発見が早くなっていないことが判る。症状発現1年未満に本疾患の診断を受けているものはわずか1例にすぎず、病悩期間6年以上が全体の83%という傾向も以前と変わらず、診断の困難さを示唆している。

確定診断は記載のある24例中23例が上部消化管造影 X線検査によっているが、このうち6例は健康診断で偶然施行された例である。瘻孔開口部の確認も気管支ファイバーより消化管内視鏡の方が容易で (各々4例、13例)、上部消化管を検索した方が診断率が高いことが判る。胸部単純 X線写真の異常所見や咳嗽発作、血痰が契機となるため精査が呼吸器系に偏りがちであることが早期診断を困難にしている。

瘻管の交通部位は、食道側では Im、気道側は右側優位、下葉背側に向かう気管支との交通が多く、B₆13例、B₁₀7例、B₇6例の順であり、瘻管の長さは20mm以上のものが記載のある13例中の9例、口径は食道側でより広い傾向にあり、5～10mmのものが15例中7例と最も多かった。

最近5年間では Braimbridge I型 (食道憩室合併例) に属する報告が20例63%と圧倒的に多く、II型8例25%、III型3例9%、IV型0の順であり、II、I、III、IVの順とする従来²⁾³⁾の集計とは異なった傾向を示した。

先天性であることの判定基準としては、Black⁴⁾、Brunner⁵⁾、唐沢ら⁶⁾の基準が広く用いられている。要約

すれば幼少時からの現病歴があるか、手術所見、病理組織学的所見から後天性の要因を否定できるかということである。本症例は①幼少時より繰り返す上気道感染、飲水時、ピーナツ摂取時の咳嗽発作および血痰、②憩室および瘻管周囲にリンパ節の癒着や炎症性変化を認めず、これらの露出がきわめて容易であった。③組織学的に瘻管内腔は重層扁平上皮におおわれており、粘膜筋板および内輪外縦の筋層を有している（内柱上皮への移行像は認めなかったが、気道側に断端閉鎖のための縫いしろを残したためと思われる）、④後天性の要因を積極的に肯定する根拠に欠けること、などから先天性と考えた。ただし、入沢らは30%の症例で症状発現が遅延するとしており⁷⁾、井手らは後天性の瘻管でも内腔に食道粘膜が再生しうることを指摘している⁸⁾。さらに瘻管とその周囲に2次の炎症による修飾が加わる可能性もあり、上記診断基準に合致するものを一律に先天性と判定できないというのが最近の考え方で⁹⁾¹⁰⁾、筆者らもこれと同じ意見である。

また、本症例は牽引内圧性の食道憩室を伴っていることより、形態的には Braimbridge I型に分類されるが、原著ではI型は先天性の食道憩室が炎症により、2次に気道に穿孔したものと定義されており¹¹⁾、このためI型を後天性のものと分類する立場をとる者もある³⁾。憩室、瘻管の双方共先天性と思われる症例を他型に分類している報告もあり¹²⁾、混乱が生じている。形態的所見のみから分類し、成因については個別に考える方が臨床上実用的と考える。

本症例で切除した瘻管は食道側で分岐し、上方の脚が憩室と連絡していたが、下方の脚は索状の盲端となっていた。また、口側の憩室からも肺実質に向かう径2mm、長さ10mmの索状物を認めたが、縫合結紮するに止どめたため組織学的に管腔構造を有するか否かは不明である。切除した瘻管も4年前には索状の構造物であったはずで、憩室から伸びる索状物が気道に開存して瘻管となった例、2個の中部食道憩室から異時性に2つの食道気管支瘻を認めた例¹²⁾が報告されていることを考えると、これが成人発症の憩室を伴う先天性食道気管支瘻の潜在的な病態であるとも考えられる。解剖学的には気管分岐部以下の食道の筋層は薄く脆弱で、神経や血管が壁外から進入するため、先天的に抵抗の弱い部を形成し、さらに右側のみが周囲に支持組織を欠くという特徴がある。仮にこのような限局性の筋脆弱部に分離不全による索状物が残存すれば、牽引性、圧出性双方の要素が加わり、かくのごとき形

態を呈すると思われるが憩室と索状物の因果関係は不明であり、推論の域を出ない。

次に、本症例が臨床上先天性のものである可能性が高いとすれば、60代後半になって急に発症増悪した事実をどう解釈するかが問題である。発達遅延の理由については1)食道皺襞が瘻孔をおおっている(Negus)¹³⁾、2)瘻管入口部に膜様隔壁があり、これが何らかの要因で破れる(Jackson & Coats)¹⁴⁾、3)瘻管が上向きのため、症状が出現し難い(Demong)¹⁵⁾など諸説あり、各々を裏付ける症例報告もあることから^{16)~18)}、その理由も一様ではないと思われる。瘻管が狭小で、末梢の気管支に交通しているのであれば幼少時の症状は軽微で看過され易いであろうし、自験例では加齢に伴う食道組織の弾力性の消失、嚥下時の生理学的機能の不全化、あるいは重度の喫煙、飲酒といった外因性の刺激も誘因となっていると思われる。流体力学的にも、一度開存してものが通過するようになれば、次第にその流量が増加し、瘻管内腔を押し広げようと働く力が漸増してくることは自明の理である。

最後に治療法について、唯一確実の根治療法は外科的に瘻管を切除し気道と食道を分離することである。唐沢らの集計では74例中52例(70%)が肺合併切除を施行されているが、最近5年間ではこれが26例中14例(54%)と減少傾向にある。もとより非悪性疾患であり、罹患肺の換気能が不可逆性に低下している場合、あるいは線維性萎縮、肺化膿症により肺の基本構築が破壊されている場合に肺切除の適応を限ろうというのが最近の考え方である³⁾。

市川らは内視鏡的に瘻孔周囲にOK 432, methyl-cyanoacrylateを局注する方法を試みて有効であったと報告しており¹⁹⁾、症例によっては外科的治療に代わり、応用されるものと考えられる。

本論文の要旨は第33回日本消化器外科学会総会(平成元年2月、東京)において示説発表した。なお、本稿を終えるにあたり、御指導御校閲を賜りました慶應義塾大学外科学教室都築俊治助教授に深謝致します。

文 献

- 1) 佐多和秀, 木谷通夫, 渡辺三郎: 非悪性気管支食道瘻の1治験例, 呼吸器診療 16: 585-592, 1961
- 2) 唐沢和夫: 成人の先天性食道気道瘻, 石上浩一編, 外科Mook, 33, 金原出版, 東京, 1983, p83-92
- 3) 角村純一, 宮田正彦, 中尾量保ほか: 成人の先天性食道気管支瘻の1例—本邦例85例の検討—, 日臨外医会誌 48: 213-219, 1987

- 4) Black RJ: Congenital tracheo-oesophageal fistula in the adult. *Thorax* 37: 61-63, 1982
- 5) Brunner A: Ösophago-bronchiale Fisteln. *Münch Med Wschr* 45: 2181-2184, 1961
- 6) 唐沢和夫, 沢田勤也, 赤嶺安貞ほか: 成人の先天性食道気道瘻について. *日胸外会誌* 18: 51-60, 1970
- 7) 入沢彰仁, 吉村博邦, 守屋斗人ほか: 成人における先天性食道気管支瘻の 1 治験例. *日胸臨* 38: 467-472, 1979
- 8) 井出 研, 増沢千尋, 西 寿治ほか: 成人にみられた食道気管支瘻の 2 例. *外科* 36: 528-531, 1974
- 9) 岡田雅彦, 中村雄二, 松尾史朗ほか: 高度の冠状動脈病変および食道気管支瘻を合併した高齢者の動脈管開存症の 1 例. *呼吸と循環* 35: 667-672, 1987
- 10) 斎藤信也, 坂井邦典, 笠原潤治ほか: 食道憩室を伴った成人先天性食道気管支瘻の 1 例. *広島医* 38: 1114-1117, 1985
- 11) Braimbridge MV, Keith HI: Oesophago-bronchial fistula in the adult. *Thorax* 20: 226-233, 1965
- 12) 松森正之, 榎本 準, 久野克也ほか: 成人の多発性良性食道気管支瘻の 1 手術治験例. *日臨外医学会誌* 49: 67-70, 1988
- 13) Negus VE: Oesophagus from a middle-aged man, showing a congenital opening into the trachea. *Proc Roy Soc Med* 22: 527, 1929
- 14) Jackson C, Coats C: *The Nose, Throat & Ear & Their Disease*. Saunders, Philadelphia, 1929, p1124
- 16) Demong CV, Grow JB, Heitzman GC: Congenital tracheoesophageal fistula without atresia of the esophagus. *Am Surg* 25: 156-162, 1959
- 16) 西村 寛, 磯辺 真, 岩田定幸ほか: 成人における先天性食道気管支瘻の 4 治験例. *日胸外会誌* 35: 411-415, 1987
- 17) 中村 譲, 山住輝和, 葉玉哲生ほか: 成人における先天性食道気管支瘻. *外科診療* 14: 1067-1072, 1972
- 18) 吉野 武, 木元文彦, 橋本英樹ほか: 2 つの食道憩室を有し, 気管狭小化を伴った成人気管支食道瘻の 1 治験例. *胸部外科* 40: 149-151, 1987
- 19) 市川 寛, 粉川隆文, 北住清治ほか: 内視鏡治療が著効した先天性気管支食道瘻の 1 例. *Gastroenterol Endosc* 29: 3095-3101, 1987

A Case Report of Congenital Esophago-bronchial Fistula with Two Diverticula in the Adult

Masaaki Yokota, Shuhei Iida, Nobuyuki Toshima, Ichiro Uyama,
Masazumi Watanabe and Kiyohide Gomi*
The Department of Surgery, Nerima General Hospital
*The Department of Internal Medicine, Nerima General Hospital

Congenital esophago-bronchial fistula in the adult is extremely rare and its accurate diagnosis is difficult. Recently we treated a patient who provided significant information concerning the occurrence, pathogenesis, and explanation for the functional closure and late diagnosis of this anomaly. The patient was a 68-year-old man, who had two diverticula on the right wall of the mid-esophagus. A tiny fistula originating in the distal diverticulum had gradually developed during four years to a thicker one which directly communicated with the right B₇ segmental bronchus. Another thick chord, which had not been detected by X-ray examination, was present between the proximal diverticulum and the right lower lobe of the lung. Repair was carried out by fistulectomy with an uneventful recovery. According to the criteria proposed by Brunner and Karasawa, the disease in this case was assumed to be of congenital origin. Several acquired factors, such as reduced tissue elasticity with aging, heavy smoking and ingestion of alcohol, and frequent aspirations into the lung, will accelerate the force which enlarges the inside wall of the narrow duct.

Reprint requests: Masaaki Yokota Department of Surgery, Nerima General Hospital
2-41 Asahigaoka, Nerima, Tokyo, 176 JAPAN