

症例報告

食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1治験例

山口県立中央病院外科, 同 病理*

黒田 豊 本郷 碩 酒井 秀則
倉田 悟 中安 清 亀井 敏昭*

まれとされている食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻を経験した。症例は27歳、女性で主訴は飲水時の咳嗽である。中学生のころより飲水時むせることが多かったが、27歳時上腹部不快感、嘔気を覚え、食道胃透視を受け食道気管支瘻の診断を受けた。食道内視鏡所見上、胸部中部食道に憩室が存在し、その中央に瘻孔の開口部を認め、この奥に気管支粘膜がみられた。同部を生検し多列絨毛上皮を認めた。手術所見上、瘻管は胸部中部食道と右 B7気管支の間に存在し、直径1cm、長さ3cmであり、その周囲には炎症性癒着やリンパ節の腫大は認めず、剝離は容易であった。切除標本はほぼ全体が憩室であり、重層扁平上皮から絨毛上皮への移行部は確認されなかったが、内視鏡所見および内視鏡的瘻孔生検所見を加味し、移行性は十分に推測された。以上より成人の先天性食道気管支瘻のうち Braimbridge 分類の I 型と診断した。

Key words: congenital esophago-bronchial fistula, esophageal diverticulum, Braimbridge type I

はじめに

成人の先天性食道気管支瘻はまれであり、そのなかでも食道憩室を伴う成人先天性食道気管支瘻は特にまれとされている。最近われわれは本症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：27歳、女性、薬剤師。

主訴：飲水時のむせ。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：23歳時血痰と微熱が続き、右下葉の気管支拡張症の診断で治療を受けた。

現病歴：中学生のころより飲水時むせることが多かった。27歳時上腹部不快感、嘔気にて某病院で食道胃透視を受け、食道気管支瘻の診断のもとに当科紹介となった。

入院時現症：体格中等度、胸部聴打診上異常はなく、外表奇形および神経学的異常は認めなかった。

検査所見：検血一般、検尿、血液生化学、電解質に異常は認めなかった。CRP 陰性、ツベルクリン反応は中等度陽性、喀痰検査にて結核菌の検出はなく、呼吸機能検査も正常であった。

胸部 X 線所見：右下肺野に軽度の浸潤性陰影を認めたが、結核、悪性腫瘍を疑わせる所見は認めなかった。

食道造影所見：胸部中部食道の右側に憩室性病変を認め、この先端より右下葉気管支への造影剤の流出を認めた (Fig. 1)。

食道内視鏡所見：門歯列より25cmの部に憩室が存在し、その中央に瘻孔の開口部がみられ、この瘻孔の奥に気管支粘膜を認めた。憩室粘膜には発赤、浮腫などの炎症性変化は認めなかった (Fig. 2)。同時に施行した瘻孔上皮の生検では多列絨毛上皮であった (Fig. 3-a)。

気管支造影所見：右 B7 亜区域枝レベルで瘻管が交通し、同区域枝は円柱状拡張をなしていた。

以上より食道憩室を伴う成人の食道気管支瘻と診断し、手術適応と考え右第5肋間で開胸した。

手術所見：胸水はなく、瘻管は胸部中部食道と右下葉の間に存在し、直径1cm、長さ3cmであった。瘻管周囲には炎症性癒着やリンパ節の腫大は認めず、剝離は容易であった (Fig. 4)。食道憩室および瘻管切除を行ったが、右葉切除あるいは区域切除は行われなかった。

病理組織学的所見：切除標本はほぼ全体が憩室であり、重層扁平上皮から絨毛上皮への移行部は確認され

Fig. 1 A barium swallow showing fistulous tract communicating with the right lower lobe bronchus.

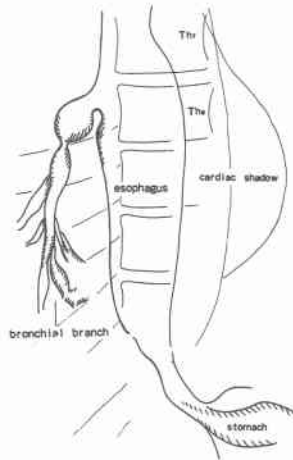
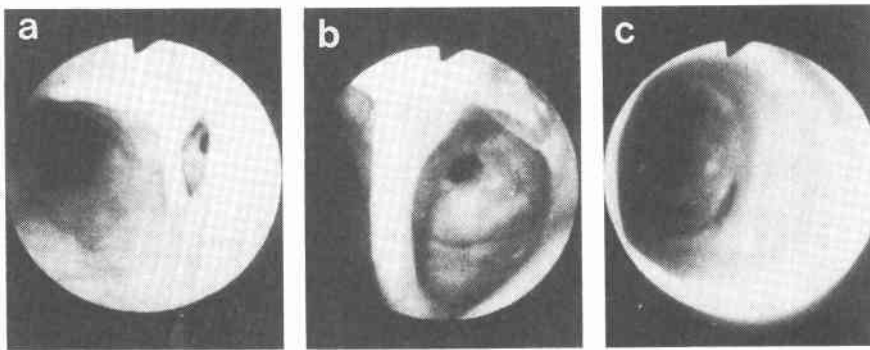


Fig. 2 Esophagoscopy revealed a diverticulum on the right wall of the mid-esophagus (a), and a round orifice at the tip of the diverticulum (b). Through the orifice, bronchial mucosa was observed (c).



なかったが、内視鏡所見および内視鏡的瘻孔生検所見を加味し、移行性は十分に推測された。なお切除標本は食道粘膜および筋層を有しているが炎症所見は認められなかった (Fig. 3-b)。

以上の所見より成人の先天性食道気管支瘻のうち Braimbridge 分類の I 型と診断した。

術後経過は良好で、術後 6 か月目の気管支造影で右

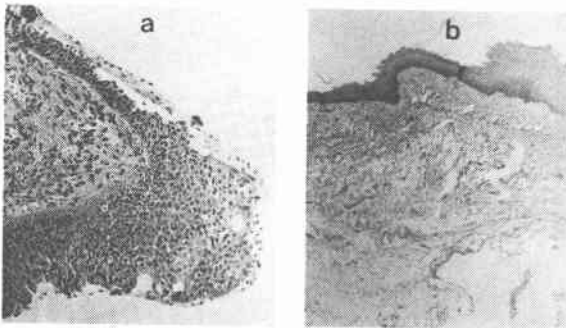
B7 の拡張所見は消失していた。

考 察

成人の先天性食道気管支瘻は確定診断の困難性もあり、その報告例は少ない。その判定基準として Brunner¹⁾が 3 つの基準を示したが、本邦では 1970 年唐沢ら²⁾が、①幼少時より水分摂取時の咳嗽発作があり、肺炎を繰り返すこと、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、瘻管の露出は容易であること、③病理組織学的には瘻管は食道固有の粘膜上皮を有し、筋層を保有しており、瘻管そのものには炎症所見がなく、あってもきわめて軽度で、食道粘膜上皮から気管粘膜への移行像が認められること、④ Braimbridge のIV型に属するもの、の4条件を提示し、③④は先天性であることの必要十分条件であると、これらを欠く場合には①②の総合判断によるとし

Fig. 3 a. Biopsy specimen from the fistula were revealed ciliated columnar epithelium of the bronchus.
b. Resected specimen showed squamous epithelium and smooth muscle layer without chronic inflammation.



た。本症例は唐沢らの③の条件のうち、食道粘膜上皮から気管支粘膜への移行像を直接とらえることはできなかったが、食道内視鏡所見および瘻孔内生検所見などから総合判断し、その移行性は十分考えられる。

Braimbridge³⁾は先天性食道気管支瘻を形態学的所見から4型に分類した。倉重ら⁴⁾は1981年までの成人の先天性食道気管支瘻の本邦報告例90例を集計し、I型14.1%、II型48.4%、III型32.8%、IV型4.7%であり、I型はまれとしており、また Braimbridge 自身もI型の症例を提示していない。本症例はI型に属するが、著者らが検索しえた限りでは、本邦では21例の報告をみるにすぎず、本症例が22例目となる (Table 1)^{2)4)5)~22)}。

以下これら22例に対して若干の検討を試みた。平均年齢は48.1±2.3歳であり、本症例は27歳で最年少であった。性別では男性8例、女性14例で女性が2倍弱と多かった。臨床症状は飲水時の咳嗽を中心とした呼吸器症状が多いが、無症状経過例もある。発症時期は幼少期からとするものが多いが、罹病期間が1年未満症例が3例であった。この臨床症状の発現の遅延の機序に関して Jackson ら²³⁾は瘻管の入口部に膜様物が存在し、後日破れて瘻管が交通するためとしている。

診断の端緒となった検査は、全例が呼吸器系の検索でなく、食道造影や食道鏡などの上部消化管検査で

Fig. 4 A fistula 30mm long and 10mm wide connected the esophagus to an opening in the right lower lobe bronchus. There were no external evidence of inflammation around the fistula and no swollen lymph nodes.

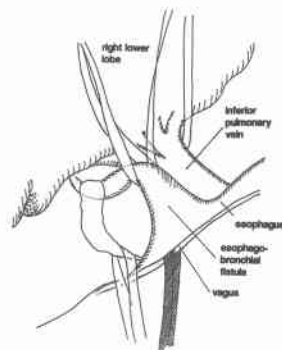


Table 1 Reported cases of Braimbridge I type disease in the Japanese literature.

Authors and reported date	Age	Sex	Chief complaint	Duration (yrs)	Diagnosis	Communicating bronchus	Therapy
Mohri et al. ⁵⁾ 1967	48	M	swallowing disturbance	—	—	right main bronchus	D
Karasawa et al. ²⁾ 1970	51	F	cough on swallowing	1.5	esophagography	right B ⁶	DF+S ⁶ , S ²
Kodama et al. ⁶⁾ 1973	62	M	cough on swallowing	from young	esophagography	right B ⁶	DF
Koga and Tsuboi. ⁷⁾ 1974	64	F	hemoptysis	from infant	esophagography	right lower lobe	F+RML, RLL
Kurashige et al. ⁴⁾ 1979	39	M	hematemesis	1.5	esophagoendoscopy	right B ⁶	DF
Yajima et al. ⁸⁾ 1980	51	F	cough on swallowing	from infant	esophagography	right B ⁶	DF
Kusagawa et al. ⁹⁾ 1982	36	M	hemoptysis and fever	from infant	esophagography	right B ⁶	DF+RLL
Sato et al. ¹⁰⁾ 1982	41	F	cough and sputum	2	esophagography	right B ⁶	F+S ⁶
Ikeda et al. ¹¹⁾ 1982	60	F	cough on swallowing	from infant	esophagography	right B ⁶	DF
Ikeda et al. ¹¹⁾ 1982	48	F	cough on swallowing	28	esophagography	right B ⁶	DF+S ⁶
Ohtani et al. ¹²⁾ 1982	32	F	swallowing disturbance	7	esophagography	right B ¹⁰	DF
Tanaka et al. ¹³⁾ 1982	43	M	cough on swallowing	from young	esophagography	right B ⁶	DF+S ⁶
Nagamine et al. ¹⁴⁾ 1983	45	M	cough on swallowing	0.1	esophagography	right B ⁶	DF
Wagai et al. ¹⁵⁾ 1983	32	F	cough on swallowing	7	esophagography	right B ¹⁰	DF
Sakurai et al. ¹⁶⁾ 1984	56	F	cough on swallowing	6	esophagography	right B ⁷	DF
Yaginuma et al. ¹⁷⁾ 1984	67	F	cough on swallowing	0.1	esophagography	left B ¹⁰	DF
Kohiyama et al. ¹⁸⁾ 1984	42	F	no complaint	0.1	esophagography	right B ⁷	DF+RLL
Utsunomiya et al. ¹⁹⁾ 1984	43	M	cough on swallowing	11	esophagography	right B ⁶	DF
Saito et al. ²⁰⁾ 1985	62	F	cough on swallowing	from young	esophagography	right B ⁶	DF
Shiiki et al. ²¹⁾ 1986	54	F	cough on swallowing	3	esophagography	right B ⁶	DF
Tsuzuka et al. ²²⁾ 1987	56	M	chest pain and back pain	from infant	esophagography	right B ⁶	DF
Kuroda et al.	27	F	cough on swallowing	13	esophagography	right B ⁷	DF

D: diverticulectomy, DF: diverticulectomy & fistulectomy

S: segmentectomy, RML: right middle lobectomy, RLL: right lower lobectomy

あった。

交通部位は1例を除く21例が右葉であり、右主気管支の1例を除き20例が右下葉と交通している。区域気管支では右B⁶が14例、右B⁷、右B¹⁰がそれぞれ3例で右B⁶が最も多い。倉重ら⁴⁾も先天性食道気管支瘻の交通部位は右優位、下葉優位、S⁶優位、S^{6c}優位としている。

治療方法は全例が憩室・瘻管切除を基本術式としており、7例に対して肺葉切除あるいは区域切除が追加されていた。このように憩室・瘻管切除による瘻孔閉鎖をはかるのを原則とする報告が多いが、市川ら²⁴⁾は内視鏡的に外科用接着剤 methyl-cyanoacrylate (フロンアルファA)にOK-432の併用を試みて瘻孔閉鎖に成功したと報告している。唐沢ら²⁾は二次性気管支拡張症や肺化膿症を併発している症例には、肺合併切除を行うべきであるとしているが、矢島ら⁸⁾は化学療法の進歩した現状では瘻管切除を基本とし、肺切除についてはその適応を厳密にする必要があるとしている。著者らの場合も肺合併切除は行わなかったが、6か月後の気管支造影では気管支拡張所見は消失していた。

本論文の要旨は第34回日本消化器外科学会総会(平成元年7月、久留米)にて報告した。

文 献

- 1) Brunner A: Oesophagobronchiale fisteln. Münch Med Wschr 103: 2181—2184, 1961
- 2) 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
- 3) Braimbridge MV, Keith HI: Oesophagobronchial fistula in the adult. Thorax 20: 226—233, 1965
- 4) 倉重眞澄, 草地信也, 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
- 5) 毛利喜久男, 石上浩一, 山本国太郎ほか: 食道気管支瘻を合併した先天性中胸部食道憩室の手術治験例. 日胸外会誌 15: 1269, 1967
- 6) 小玉正智, 原 智次, 久保雄治ほか: 憩室を伴う食道気管支瘻の1例. 外科 35: 673—676, 1973
- 7) 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
- 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治験例. 日胸外会誌 28: 124—131, 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治験例. 外科 44: 738—741, 1982

- 10) 佐藤日出夫, 渡辺洋宇, 前沢欣充ほか: 晩発先天性食道気管支瘻の3手術治験例. 日胸臨 41: 236-241, 1982
- 11) 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治験例. 日胸臨 41: 997-1003, 1982
- 12) 大谷洋一, 飯田富雄, 菊池友允ほか: 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1治験例. 日臨外医会誌 43: 399-403, 1982
- 13) 中田文隆, 福岡誠吾, 沢田 勤ほか: 食道憩室及び気管支分岐異常を伴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
- 14) 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
- 15) 和頭房代, 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
- 16) 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
- 17) 柳沼巖弥, 俣野一郎, 東福寺元久ほか: 成人の食道憩室を伴う先天性食道気管支瘻の1治験例. 医療 38: 1009-1013, 1984
- 18) 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 45: 1596-1600, 1984
- 19) 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
- 20) 斉藤信也, 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
- 21) 椎木滋雄, 桑田康典, 柏原瑩爾ほか: 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1例. 日臨外医会誌 47: 1445-1449, 1986
- 22) 手塚秀夫, 井手博子, 押淵英晃ほか: 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1例. 日消外会誌 20: 2197-2200, 1987
- 23) Jackson C, Coates GM: The nose, throat and Ear and their disease. Saunders, Philadelphia, 1929, p1124
- 24) 市川 寛, 粉川隆文, 北住清治ほか: 内視鏡的治療が著効した先天性気管支食道瘻の1例. Gastroenterol Endosc 29: 3095-3100, 1987

A Case of Congenital Esophago-Bronchial Fistula with Diverticulum in the Adult

Yutaka Kuroda, Hiroshi Hongo, Hidenori Sakai, Satoru Kurata,
Kiyoshi Nakayasu and Toshiaki Kamei*

Department of Surgery, Prefectural Yamaguchi Central Hospital and *Department of
Pathology, Prefectural Yamaguchi Central Hospital

A case of congenital esophago-bronchial fistula with an esophageal diverticulum in a 27-year-old female is presented. The patient, a pharmacist, was referred to the Yamaguchi Central Hospital in April 1988, complaining of paroxysmal coughing after liquid ingestion which she had suffered from for about 14 years. A barium swallow showed a fistulous tract between the esophagus and the right lower lobe bronchus (B7). Esophagoscopy examination revealed that a diverticulum with a round opening was present in the middle thoracic esophagus (25 cm from the incisors). Bronchial mucosa was seen through the opening. An endoscopic biopsy specimen from the fistula consisted of ciliated columnar epithelium. On May 20th, 1988, she was treated by right thoracotomy and complete removal of the fistulous tract and the diverticulum. The esophago-bronchial fistula was 3 cm in length and 1 cm in diameter, without adhesion to the surrounding structures. There was no lymph node swelling around the fistula. The resected specimen was free from inflammatory change such as lymphocyte infiltration and fibrosis. A transitional zone from squamous epithelium to ciliated epithelium was not demonstrated microscopically, but mucosal transition was thought to be present from endoscopic examination and finding of biopsy. Hence, this case was categorized as Braimbridge type I esophago-bronchial fistula.

Reprint requests: Yutaka Kuroda Department of Surgery, Prefectural Yamaguchi Central Hospital
77 Oosaki, Houfu, 747 JAPAN