

症例報告

胆嚢摘出術後肺合併症で発見された先天性食道気管支瘻の1切除例

大阪市立大学第2外科

福原研一朗 大杉 治司 井上 清俊 高田 信康
竹村 雅至 加藤 俊彦 加藤 裕 岩田 隆
西田 達 木下 博明

先天性食道気管支瘻の1切除例を経験したので報告する。症例は56歳の男性。胆石症に対し開腹下胆嚢摘出術後に左下葉の大葉性肺炎を併発した。この原因検索として術前に認められていた中部食道の憩室より造影検査を行ったところ、左下幹気管支への瘻孔を認め、先天性食道気管支瘻と診断した。胆摘術後115日目に左下葉切除・憩室瘻管切除を施行し、以後、肺炎の併発をみていない。病理学的に食道粘膜上皮から気管粘膜上皮への移行像が認められることより、先天性食道気管支瘻、食道憩室に瘻孔を形成する Braimbridge I 型と確診された。成人発症の先天性食道気管支瘻はまれな疾患であり、その約45%は食道憩室を伴う Braimbridge I 型である。食道憩室を発見した場合、先天性食道気管支瘻の可能性を考慮し、憩室内を精査することにより、嚥下性肺炎を予防できると思われる。

はじめに

成人に発症する食道気管支瘻は、その大部分が悪性腫瘍に起因している。その他、炎症・異物や劇薬嚥下などによる後天性によるものが大多数で、先天性に分類されるものは比較的まれである。今回、われわれは胆嚢摘出後に発症した肺炎の精査中に発見された先天性食道気管支瘻に対し、外科的治療が奏功した1例を経験したので報告する。

症 例

患者：56歳，男性

既往歴：肺炎・嚥下困難など特になし。

家族歴：特になし

現病歴：1997年1月24日胆石症に対し、開腹下胆嚢摘出術を施行された。経口摂取を開始した術後1日目より左下葉の大葉性肺炎を合併し、4日間の抗菌剤投与にて軽快した。完治したため患者は肺炎の原因検索や外科的治療になかなか同意せず、胆摘術後115日目に当科入院となった。

入院時現症：上腹部正中切開創を認めるほか、呼吸音に異常は認めなかった。

入院時検査所見：WBC 4,600/mm³，CRP 0.3mg/dl，その他にも異常値を認めず、呼吸機能も正常であった。

Fig. 1 Esophagogram showed the esophagobronchial fistula between the esophageal diverticulum and bronchus of the left lower lobe.



< 1999年9月22日受理 > 別刷請求先：福原研一朗
〒545 8585 大阪市河倍野区旭町1 4 3 大阪市立
大学第2外科

Fig. 2 Endoscopy reveals the esophageal diverticulum with 5 fistula (arrows) orifices 33 cm from the incisors.

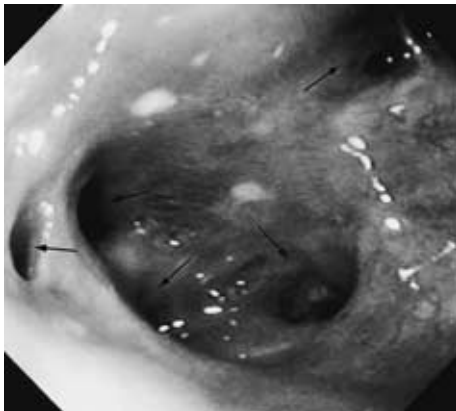
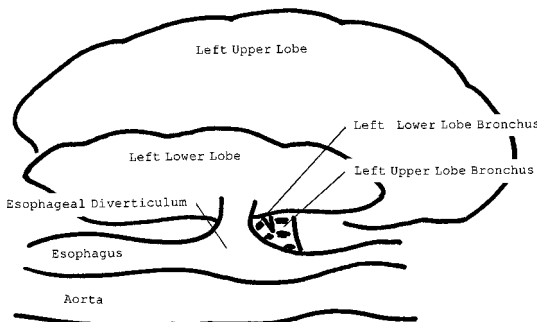


Fig. 3 The shema of the operative findings. Fibrous connective tissue between the esophageal diverticulum and bronchus of the left lower lobe was detected.



ツベルクリン反応は疑陽性であった。

胸部 X 線像：左下葉の虚脱像が見られたが、結核病巣や腫瘤陰影は認めなかった。

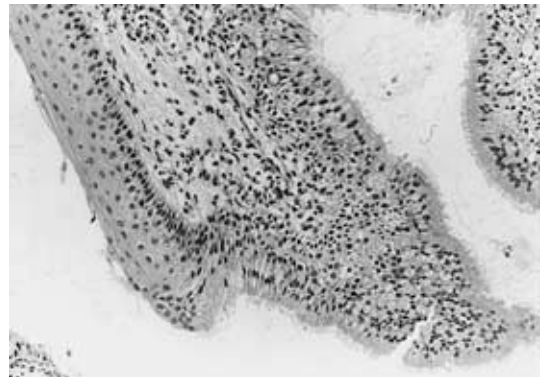
食道造影検査：中部食道に憩室を認め、この底部から左下気管支に造影剤の流出が認められた (Fig. 1)。

上部消化管内視鏡検査：切歯より33cm、食道左壁に憩室を認めた。その粘膜に異常はなかったが、底部に5個の小孔を認めた (Fig. 2)。

気管支鏡検査：肉眼的に瘻孔は確認できなかった。食道憩室底部の小孔よりインドシアニングリーンを注入したところ、B6, 8, 9, 10への流入が認められた。

手術所見：1997年5月19日、左第6肋間後側方切開にて開胸を行った。全体的に胸膜癒着を認めたが、胸

Fig. 4 Pathological examination showed that the communication of the squamous epithelium of the esophagus and ciliated epithelium of the bronchus. (×80)



水はなかった。下葉は後側方にほぼ完全に虚脱・肉質化し、上葉が代償的に拡張していた。中部食道に左側に突出する筋層を有する食道憩室を認め、これより左下幹気管支に交通する径1cmの索状物を同定した (Fig. 3)。肉眼的には周囲に炎症所見は認めなかった。自動吻合器にて食道憩室を切離し、外膜筋層縫合を追加した。つづいて気管側を開放し消息子を用い精査したところ、左B6を中心に下葉気管支に多数の瘻孔が見られた。瘻孔の再燃が危ぐされ、また下葉が肉質化していたため、左肺下葉切除を施行した。

切除標本：食道憩室からS6に瘻管が1本交通しているが、他の瘻管は細く肉眼的に交通は確認できなかった。

病理組織所見：食道憩室から瘻管・左肺へ重層扁平上皮から線毛円柱上皮への移行像がみられ、また炎症性変化が乏しく腫瘤を認めないことから先天性食道気管支瘻と診断した (Fig. 4)。

考 察

食道気管支瘻は大きく先天性と後天性に分類される。成人発症例では悪性腫瘍・外傷・炎症などに起因する後天性が大多数である。先天性食道気管支瘻の97~99%は食道閉鎖を伴った食道気管瘻で、出生直後に発見される症例が大多数である¹⁾。残りの1~3%にはGross H型食道気管瘻と気管支と交通する食道気管支瘻が含まれ、成人発症の先天性食道気管支瘻はまれである。

食道気管支瘻を先天性とする判定基準として、1961年 Brunner²⁾は①手術時、瘻管の周囲および食道周囲

Table 1 The location of the esophagobronchial fistula of the Braimbridge type 1 in adult

	Right	Left
Main bronchus	2	1
Intermediate bronchus	1	
Upper lobe	1	0
Middle lobe	0	
Lower lobe	42	7

S6	28	3
S7	5	
S8	0	1
S10	6	3
Unknown	3	0
Left or right unknown	2	
Total	56	

に炎症所見がないこと, ②瘻管にリンパ節の癒着のないこと, ③組織学的に, 瘻管は正常食道粘膜を有し, 粘膜筋板を所有していること, を挙げている。また, 1970年唐沢ら³⁾は①幼少時より水分摂取時の咳嗽発作や繰り返す肺炎の既往, ②手術時, 瘻管露出が容易, ③組織学的に瘻管が食道粘膜と筋層を有し, 気管支粘膜上皮への移行が認められる, ④肺分画症を伴い, 食道と分画肺との間に瘻孔形成した Braimbridge の IV 型に属するものを挙げている。そして, ③④は先天性とみなす必要十分条件であり, これを欠くときには①②の総合判断によるとしている。この判断基準が現在もなお, 最も一般的とされている。本症例は②③を満たしており, 総合的にみても食道憩室に瘻孔の開口した Braimbridge I 型先天性食道気管支瘻と診断された。

なお, Braimbridge Ⅰ型⁴⁾は成人の先天性食道気管支瘻を本症例のように先天性食道憩室を伴いその先端部に瘻孔を形成する I 型, 単純な瘻孔を形成する II 型, 食道と肺嚢胞との間に瘻孔を形成する III 型, 肺分画症に伴い食道と分画肺との間に瘻孔を形成する IV 型の 4 亜型に分類している。分類別頻度としては黒田ら⁵⁾によれば I 型が45%と最多で, II 型が41.5%, III 型が11%, IV 型が2.5%の順となっている。

1998年までに医学中央雑誌を用いて検索しえた本邦における Braimbridge I 型先天性食道気管支瘻報告例は56例 (Table 1) であった。解剖学的に気管分岐部以下の食道の筋層は薄く, 神経や血管が壁外から進入するため, 先天性に抵抗の弱い部位を形成し, 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。これらの発生学的特異性のため索状物が残存し, 牽引性・圧出性要素によって発症する可能性が指摘している⁶⁾。したがって, 右側に発生頻度が高く, 気管支以下の発生頻度が高いことについて理論的に説明が付く。すなわち右側, 下葉, B6に優位に多いといえよう。

先天性疾患にもかかわらず, 症状発現が遅延する理由として, Jackson ら⁷⁾は瘻管を閉鎖していた膜様物が破れ瘻管が交通するためであるとしている。Negus⁸⁾は食道皺襞が瘻管の入り口に overlapping していたものが, 加齢とともに可動性を失うために瘻管が形成される。さらに, Demong ら⁹⁾は瘻管が上向きのために症状が発現しにくいなどとしているが, いまだ定説には至っていない。本症例では胆嚢摘出術の術前上部消化管内視鏡検査では, 食道憩室は認められていたが, 瘻孔は確認されていなかった。それが術後肺合併症の発生を契機に精査したところ, 複数の瘻孔の開口が確認された。術中の陽圧呼吸による気道内圧の上昇, 抜管時などの強い咳嗽が潜在的な瘻管を開通させたとも考えられた。

以上, 今回われわれは手術を契機にして発症, 発見された先天性食道気管支瘻の1例を経験した。術前に上部消化管内視鏡検査で食道憩室を認めた場合, 本例のような先天性食道気管支瘻の可能性を考慮し, 注意深く憩室内を検索する必要があると考える。もし, 瘻管開口が疑われた場合には造影検査で精査し, 嚥下性肺炎併発を考慮に入れ, 加療すべきである。

文 献

- 1) Helmsworth JA, Pryles CV : Congenital tracheoesophageal fistula without esophageal atresia. J Pediatr 38 : 610-617, 1951
- 2) Brunner A : Oesophagobronchale fisteln. Nunch Med Wschr 103 : 2181-2184, 1961
- 3) 唐沢和夫, 沢田勤也, 赤峰安貞ほか : 成人の先天性食道瘻について。日胸外会誌 18 : 51-61, 1970
- 4) Braimbridge MV, Keith HI : Oesophagobronchial fistula in the adult. Thorax 20 : 226-233, 1965
- 5) 黒田久弥, 五嶋博道, 富田 隆ほか : 食道憩室に連続した成人の先天性食道気管支瘻の1例。日臨外医会誌 56 : 1825-1829, 1995
- 6) 横田昌明, 飯田修平, 戸嶋暢之ほか : 2個の食道憩室を伴う先天性食道気管支瘻の1例。日消外会誌 23 : 1130-1134, 1990
- 7) Jackson C, Coates C : The Nose, Throat & Ear & Their Disease. Saunders, Philadelphia, 1929, p 1124-1125

8) Negus VE : Oesophagus from a middle-aged man,
showing a congenital opening into the trachea.
Proc Roy Soc Med 22 : 527, 1929

9) Demong CV, Grow JB, Heitzman GC : Congenital
tracheoesophageal fistula without atresia of the
esophagus. Am Surg 25 : 156 162, 1959

Congenital Esophagobronchial Fistula Complicated with Pneumonia
after Cholecystectomy : Report of A Case

Kenichiro Fukuhara, Harushi Osugi, Kiyotoshi Inoue, Nobuyasu Takada,
Masashi Takemura, Toshihiko Kato, Hiroshi Kato, Takashi Iwata,
Tatsuya Nishida and Hiroaki Kinoshita
Second Department of Surgery, Osaka City University, Medical School

An adult case of congenital esophagobronchial fistula is reported. A 56-year-old man known to have diverticulum in the midesophagus, was referred to us for evaluation of pneumonia of the left lower lobe which developed after open cholecystectomy. Careful endoscopic observation revealed tiny orifices in the bottom of the diverticulum, and fistulography showed connection between the orifices and the left lower lobe bronchus. On the 115 th day after cholecystectomy, the esophageal diverticulum and the fistula were removed together with the resected left lower lobe through a left thoracotomy. Recovery has been uneventful with no respiratory infection. The condition was diagnosed as congenital esophagobronchial fistula because the direct communication between the esophageal epithelium with muscular mucosa and the bronchial epithelium was confirmed histologically and was classified as Braimbridge type I since the fistula orifice was in the esophageal diverticulum. Congenital esophagobronchial fistula manifesting in adulthood is rare, and 45% are Braimbridge type I. Careful endoscopic observation of the esophageal diverticulum and consideration of congenital esophagobronchial fistula may avoid unnecessary aspiration pneumonia.

Key words : congenital esophagobronchial fistula, Braimbridge type I, surgical treatment

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 62 65, 2000]

Reprint requests : Kenichiro Fukuhara Second Department of Surgery, Osaka City University, Medical School

1 4 3 Asahimachi, Abeno-ku, Osaka, 545 8585 JAPAN
