

症例報告

胸腔鏡下に根治手術を行いえた先天性食道気管支瘻の 1 例

箕面市立病院外科

谷川 隆彦 黒川 英司 木村 豊
林 太郎 浦野 尚美 加藤 健志
遠藤和喜雄 山本 仁 吉川 宣輝

症例は 59 歳の女性。1997 年の検診時に上部消化管造影で、食道憩室を指摘されていた。1998 年 9 月、約 2 週間の咳と痰が持続し、胸部 X 線検査にて右下肺野に浸潤陰影が認められ、肺炎と診断された。抗生剤投与により肺炎は軽快したが、食道造影および胸部 CT 検査により食道気管支瘻が認められたため、外科的治療を目的として入院となった。CT 画像上、肺および憩室・瘻孔周囲の炎症所見は軽度であったため、胸腔鏡下に 1 期的根治手術を行った。憩室の露出は比較的容易で Stapler を用いて憩室切除を行った。術後合併症は認めず、予後も良好であった。手術所見および病理所見から、本症は先天性食道気管支瘻と診断された。これまで、開胸手術による憩室瘻管切除術が主として行われているが、本症例の経験より、先天性食道気管支瘻の外科的治療において胸腔鏡下憩室切除術も術式の 1 つになりうると考えられた。

はじめに

先天性食道気管支瘻の多くは食道閉鎖を伴っており、小児外科領域における対象疾患となる。しかし、まれではあるが成人で発症する例も報告され、その多くは開胸手術により軽快している。今回、われわれは胸腔鏡下に根治手術を行いえた、先天性食道気管支瘻の 1 例を経験したので報告する。

症 例

症例：59 歳，女性

主訴：咳，痰

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：33 歳，子宮筋腫手術。41 歳，肺炎により 20 日間入院。50 歳，肺炎により 10 日間入院。54 歳，胆石症手術（開腹）。56 歳，糖尿病

現病歴：1997 年 3 月 7 日，胃癌検診で上部消化管造影を行い食道憩室を指摘されていた。1998 年 9 月，約 2 週間の咳と痰が持続し，胸部 X 線検査にて右下肺野に浸潤陰影が認められ肺炎と診断された。食道造影，胸部 CT，食道内視鏡および気管支鏡にて食道憩室を伴った食道気管支瘻が疑われた。抗生物質の経口投与

により症状は軽快した。食道気管支瘻が繰り返し発症する肺炎の原因と考えられたため、外科的治療を目的として 11 月 25 日入院となった。

入院時現症：身長 145cm，体重 58kg，呼吸音は正常で，他の理学的所見にも異常を認めなかった。血液・生化学検査では，空腹時血糖 152mg/dl 以外に異常を認めず。呼吸機能検査では軽度の拘束性換気障害を認めた。外来受診時に認めた胸部 X 線上の浸潤影は，消失していた。

食道造影：気管分岐部およびその 3cm 肛門側の 2 か所に食道憩室が認められた。肛門側の憩室から気管支に向かって，バリウムの漏出を少量認めた（Fig. 1）。

胸部 CT：右下葉に気管支壁の肥厚を認めた。また，右下葉気管支から縦隔に向かって連続する soft tissue density と内部の air density が認められ，憩室と考えられた（Fig. 2a）。拡大像では，憩室の末梢側に，憩室とほぼ垂直方向に向かう直径 2mm の air density を認め，瘻孔あるいは B7 気管支末梢と考えられた（Fig. 2b）。憩室・瘻孔周囲に繊維化や浸潤影などの炎症所見は認めなかった（Fig. 2c）。

食道内視鏡：気管分岐部およびその 3cm 肛門側の 2 か所に食道憩室を認めた。憩室内に内視鏡を挿入したが，粘膜面に発赤・浮腫・腫脹などの炎症所見は認

Fig. 1 Barium esophagogram showing two diverticula (arrows). One of them had an esophagobronchial fistula (bold arrow) with the barium leakage into the peripheral bronchus.



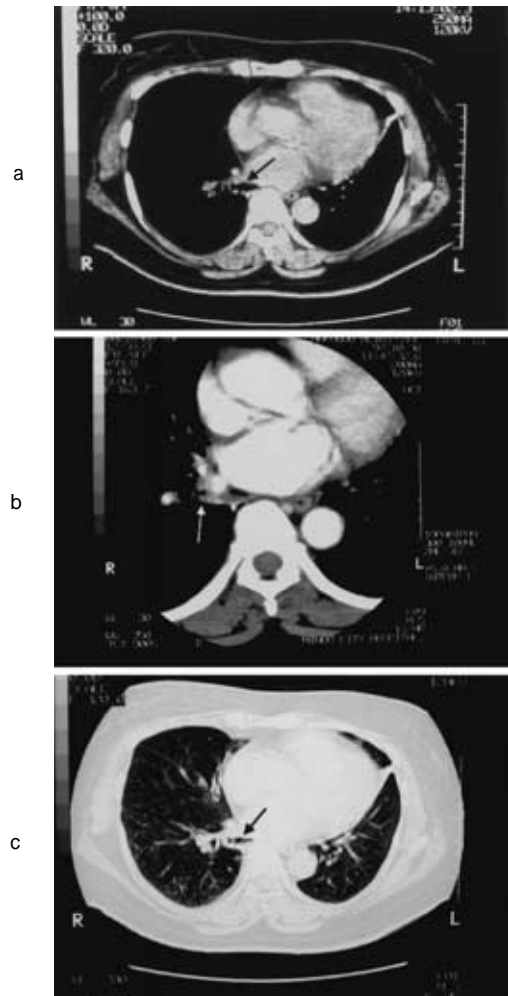
めなかった。肛門側の食道憩室底部に瘻孔の開口部を認め、生検鉗子の挿入が可能であった (Fig. 3)。

気管支鏡：右肺 B⁷ 粘膜の浮腫および、その末梢側から白濁した分泌物を認めたことから、右 B⁷ の奥に瘻孔が開口していると考えられた (Fig. 4)。

以上の画像所見から、食道憩室を伴った右肺 B⁷ に開口する食道気管支瘻と診断した。右肺下葉から憩室周囲の炎症所見が軽度であるため胸腔鏡下手術が可能と判断し、1998年11月27日、手術を施行した。

手術所見：全身麻酔下に手術を行った。まず、第7肋間中腋窩線上に10mmのポートを挿入し胸腔鏡下に観察すると、肺尖部を中心に強度の癒着を認めた。第6肋間前・後腋窩線上および第5肋間中腋窩線上の計3か所にそれぞれ10mm, 10mm, 5mm, のポートを挿入した。癒着の剝離および右肺の脱気により、縦隔側の良好な視野を得ることができた。縦隔胸膜を切開後、奇静脈を切離した。食道壁を露出し、術中内視鏡を行い、食道憩室の位置を確認した。食道憩室は肺下葉に連続しており、肺内で瘻孔を形成していると考えられた。憩室周囲の炎症性癒着や壁肥厚などはほとん

Fig. 2 Chest CT showing an air density space which indicate the esophageal diverticulum (arrow (a)). A small air density was observed as the esophagobronchial fistula or bronchus of B7 (arrow (b)). No severe infiltration shadows and inflammatory changes can be seen around the esophageal diverticulum (c)



ど認めなかった。憩室の全周を露出した後テープを通して把持し、staplerを用いて両端を切離 (Fig. 5)、摘出した。肺尖部の癒着剝離に時間を要したため手術時間は5時間27分、出血量は50mlであった。

病理組織学的所見：切除した憩室の内腔は扁平上皮層に被われ、平滑筋層も保たれていた。軽度の角化形成による過形成部分を認めたが、細胞浸潤などの炎症

Fig. 3 Esophagoscopy revealed two diverticulus with normal mucosae. A biopsy forceps was inserted into the fistula (arrow) at the bottom of esophageal diverticulum.

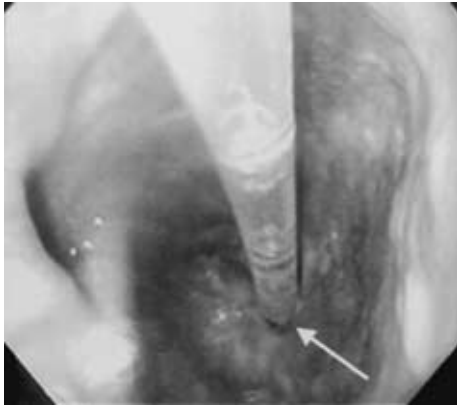
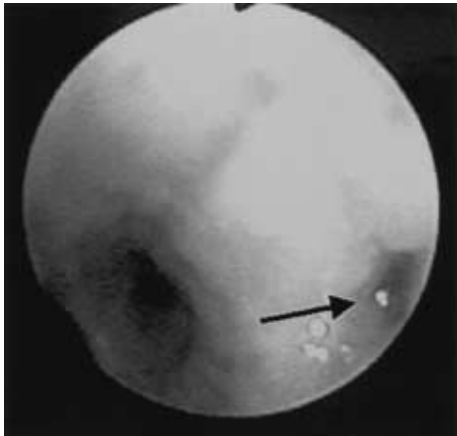


Fig. 4 Bronchoscopy showing white discharge from the bronchus of B7 indicated the presence of the esophagobronchial fistula. An edematous mucosa was observed at the peripheral branch of bronchus of B7 (arrow)



所見や繊維化は認めなかった (Fig. 6).

術後経過: 手術後1週間目にガストログラフィンにて造影を行った後 (Fig. 7), 経口摂取を開始し, 手術後13日目に退院となった. 退院後, 現在約2年経過したが, 特に症状は認めていない.

Fig. 5 In the thoracoscopic operation, no severe adhesion was observed and we performed diverticulectomy using endostapling.

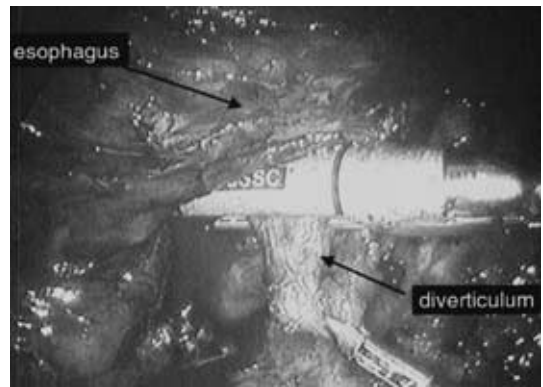
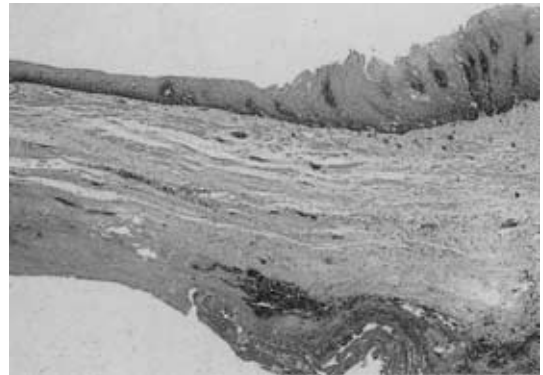


Fig. 6 Microscopic findings of the resected esophageal diverticulum demonstrated squamous epithelium covered with muscle layer. There was no evidence of inflammatory changes ($\times 10$ H.E. stain)



考 察

先天性食道気管支瘻の発生頻度は, 5,000~10,000出生につき1の割合であり, なかでも, 食道閉鎖を伴わないGross-H型は, 1~3%である. また, そのうち成人発症例となるとさらに少ない. 本邦における集計例では, 男女比は1:1.55と女性に多く, 飲食時の咳嗽発作, 肺炎の既往, 血痰などが特徴的な症状としてあげられる¹⁾.

気道気管支瘻を先天性と判定する指標として Brunner²⁾や唐沢³⁾らの基準がある. Brunnerの基準は:(1)

Fig. 7 Post-operative esophagogram showing cut end of esophageal diverticulum by stapling (arrow) without any complication.



瘻管の周囲および食道周囲に炎症所見がないこと(2)瘻管にリンパ節癒着がないこと(3)組織学的に瘻管は正常食道粘膜および粘膜筋板を有することである。本症例は、手術所見および切除病理所見から、これらの診断基準を満たしており先天性と考えられる。また、内視鏡所見から、先天性食道気管支瘻の中でも食道憩室を伴いその先端に瘻孔を形成する Braimbridge-I型⁴⁾と分類される。一般に、食道憩室の部位は、中部食道が多く、また、瘻管交通部位は右下葉が多く^{5,6)}、本症例もこれに一致する。

本症例では、40歳以後、約18年間、肺炎を繰り返していたが原因診断に至らず、診断のきっかけとなったのは、胃癌検診による食道憩室の指摘であった。本症を疑った場合、その特徴的な臨床症状から食道造影や内視鏡により診断は比較的容易に行えるが、まれな疾患であるため診断が遅れる可能性がある。胸部CTは瘻孔周囲の炎症の有無や肺炎の状態を確認するために有用であり^{7,8)}、本症例においては、胸腔鏡下手術の適否を決定する根拠となった。

先天性食道気管支瘻に対する根治的治療法として、開胸による憩室瘻管切除術が一般に行われてきた。さ

らに、気管支拡張症や肺化膿症などの2次的病変が加わった症例では、肺合併切除が行われている^{1,9)}。しかし、近年、さまざまな疾患に対する鏡視下手術の試みが行われており、先天性食道気管支瘻に対しても、Akashiら¹⁰⁾が胸腔鏡下瘻孔切除術を報告している。画像診断上、瘻孔周囲に炎症所見が少ない症例では、胸腔鏡下手術のよい適応になるものと期待される¹¹⁾。胸腔鏡下手術の際、術中内視鏡は部位の同定ならびにstapling techniqueを用いた切除断端の確認に用いられ¹⁰⁾、本症例においても有用であった。したがって、胸腔鏡下瘻孔切除術に際し、術中内視鏡の準備が必要と考えられる。食道気管支瘻の再発のリスクを考えた場合、開胸手術症例の中には筋層縫合や筋肉弁による瘻孔切除部位の補強を行った報告も見られる¹⁾。本症例では、憩室周囲の炎症が軽度であったこと、および、術中内視鏡により切除断端を確認した結果、補強は必要ないと判断した。また、憩室は肺内でB7気管支と瘻孔を形成していると考えられたが、瘻孔起始部までの剝離操作は行わなかった。肺尖部の癒着剝離に手術時間を要したものの、憩室の露出は手技的にそれほど困難ではなく、手術後の経過も良好であった。

さらに低侵襲的な方法として、食道瘻に対するフィブリン糊を用いた内視鏡的瘻孔閉鎖術がある¹²⁾。しかし、食道気管支瘻で咳を伴った場合、気道内圧の上昇により思うように治療効果が得られず、治癒に長期間を要する場合が考えられる。これに対しては、バルーンによる気管支閉塞下でフィブリン糊注入を行うなどの工夫により、良好な経過をたどった報告例がみられる¹³⁾。この方法は、食道癌術後縫合不全、放射線治療後、あるいは癌局所再発による食道気管支瘻のような手術適応が困難な症例や、瘻孔の小さな末梢型の気管支瘻の場合には適応と考えられる。しかし、今回の症例のような、食道憩室を伴った先天性食道気管支瘻に対しては、憩室を含めた瘻管切除術が根治性や在院日数の面から優れており、胸腔鏡下瘻孔切除術を念頭においた治療選択が必要である。

文 献

- 1) 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. 日臨外医会誌 48: 213-219, 1987
- 2) Brunner A: Oesophago-bronchiale fisteln. Munch Med Wsch 103: 2181-2184, 1961
- 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) Braimbridge MV, Liebler HI : Oesophago-bronchial fistula in the adult. *Thorax* 20 : 226-233, 1965
- 5) 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 : 922-927, 1985
- 6) 島田友幸, 阿保七三郎, 北村道彦ほか : 食道憩室と左主気管支とが交通した先天性食道気管支瘻の 1 例. *日胸外会誌* 40 : 2100-2106, 1992
- 7) 吉澤篤人, 小林信之, 工藤宏一郎ほか : 中葉肺炎を繰り返した食道気管支瘻の 1 例. *日胸疾患会誌* 34 : 1395-1400, 1996
- 8) 清水 洋, 池田耕土, 河 相吉ほか : CT にて瘻孔の描出をみた先天性食道気管支瘻の 1 例. *臨放線* 42 : 966-967, 1997
- 9) 中村素行, 岡島邦雄, 森田眞照ほか : 食道憩室を伴った先天性食道気管支瘻の 1 例. *日臨外医会誌* 57 : 2984-2988, 1996
- 10) Akashi A, Ohashi S, Oriyama T et al : Thoracoscopic treatment of esophagobronchial fistula with esophageal diverticulum. *Surg Laparosc Endosc* 7 : 491-494, 1997
- 11) 中村 努, 井手博子 : 食道・気管支瘻. *消外* 19 : 766-767, 1996
- 12) 平尾素宏, 島田 守, 金子 正ほか : 内視鏡下ファイブリン糊治療が有効であった食道瘻の 2 症例. *日胸外会誌* 42 : 2144-2149, 1994
- 13) 宮田博志, 岡川和弘, 岸健太郎ほか : 食道癌術後の気管支瘻に対してバルーン閉塞下ファイブリン糊注入が有効であった 1 症例. *日消外会誌* 30 : 989-993, 1997

A Case of Congenital Esophago-bronchial Fistula with Esophageal Diverticulum Treated with Thoracoscopic Fisterectomy

Takahiko Tanigawa, Eiji Kurokawa, Yutaka Kimura, Taro Hayasi, Naomi Urano, Takeshi Kato, Wakio Endo, Hitoshi Yamamoto and Nobuteru Kikkawa
Department of Surgery, Minoh City Hospital

A 59 year-old woman admitted to our hospital due to cough and sputum was diagnosed with pneumonia by X-ray. An upper gastrointestinal series (UGI) showed an esophagobronchial fistula in mass screening 18 months before admission. Minimal inflammatory change around the fistula was observed by computed tomography (CT) We evaluated the fistula as resectable thoracoscopically. Operative findings showed no severe adhesion, so we conducted diverticulectomy using endostapling. Microscopic findings of resected tissue revealed squamous epithelium covered with a muscle layer suggesting a congenital structure. The postoperative course was uneventful. This surgical procedure is thus recommended for patients with congenital esophagobronchial fistula with esophageal diverticulum.

Key words : esophagobronchial fistula, esophageal diverticulum, thoracoscopic surgery

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 35 : 151-155, 2002]

Reprint requests : Takahiko Tanigawa Department of Surgery, Minoh City Hospital
5-7-2 Kayano, Minoh, 562-8562 JAPAN