

症例報告

食道癌を合併した先天性食道気管支瘻の1例

神戸市立中央市民病院外科

長井 和之 柳橋 健 宮原 勅治 岡田 憲幸
和田 道彦 正井 良和 橋本 隆 今井 史郎
小西 豊 梶原 建熙

症例は63歳の男性。幼少時より頻回の咳嗽を、特に成人後はビール摂取時の咳嗽を自覚していた。また、肺炎を繰り返していた。約3年半前に食道気管支瘻と診断されていたが、今回当科にて食道造影、食道内視鏡、気管支鏡の各検査を行い、胸部中部食道前壁と左主気管支との間に瘻孔を確認した。また瘻孔対側となる食道後壁には径約2cmの隆起性病変(扁平上皮癌)を認めた。同病変を内視鏡的に切除したところ深達度sm2であったため、右開胸開腹にて食道切除を行い、瘻管は結紮・切離した。病理組織学的には瘻管内腔は重層扁平上皮で覆われており、粘膜筋板を伴っていた。病歴、術中所見、病理組織学的所見より Braimbridge II 型先天性食道気管支瘻と診断した。本疾患と食道癌との合併例は極めてまれである。当症例では瘻孔と食道癌病変の位置関係から、瘻孔の存在が癌発生の一因になった可能性も考えられた。

はじめに

成人の先天性食道気管支瘻は比較的まれな疾患である。さらに、本疾患と食道癌との合併例は極めてまれであり、我々の検索しえた限り報告例は本邦での1例のみであった¹⁾。今回、食道気管支瘻の精査中に食道癌の合併が確認され、手術を行った1例を経験した。食道気管支瘻は先天性のものと考えられた。文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：63歳，男性

主訴：咳嗽，特にビール摂取時の咳嗽

既往歴：3～4年に1度ほど繰り返す肺炎

喫煙歴：60本/日，1980年までの約20年間

飲酒歴：毎日ビールを多量に摂取

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：幼少時より咳嗽が多く、特に成人してからはビール摂取時の咳嗽を自覚していた。1990年頃からはほぼ毎年検診で上部消化管造影検査を受けており、食道の異常を指摘されていた。1998

年3月他医で精査され食道気管支瘻と診断された。症状が軽微であったため経過観察されていたが、2001年11月5日かかりつけ医の勧めで当科受診し、2002年1月7日精査加療目的で入院となった。

入院時現症：身長171cm，体重64kg。聴診上、左前胸部下方にて吸気時に水泡音を認めたほか、理学的所見上異常を認めなかった。

検査成績：血液生化学検査ではCRP 1.0mg/dlと軽度の上昇がみられた。腫瘍マーカーはsquamous cell carcinoma(以下、SCCと略記)抗原1.2ng/ml，CEA<1.0ng/ml，シフラ0.6ng/mlといずれも正常値であった。

胸部X線検査：左肺門から下肺野にかけて索状影，粒状影を認めた。

食道造影検査：左気管支への造影剤の漏出を認めた。瘻孔の対側となる胸部中部食道後壁に径約2cmの隆起性病変を認めた(Fig.1)。

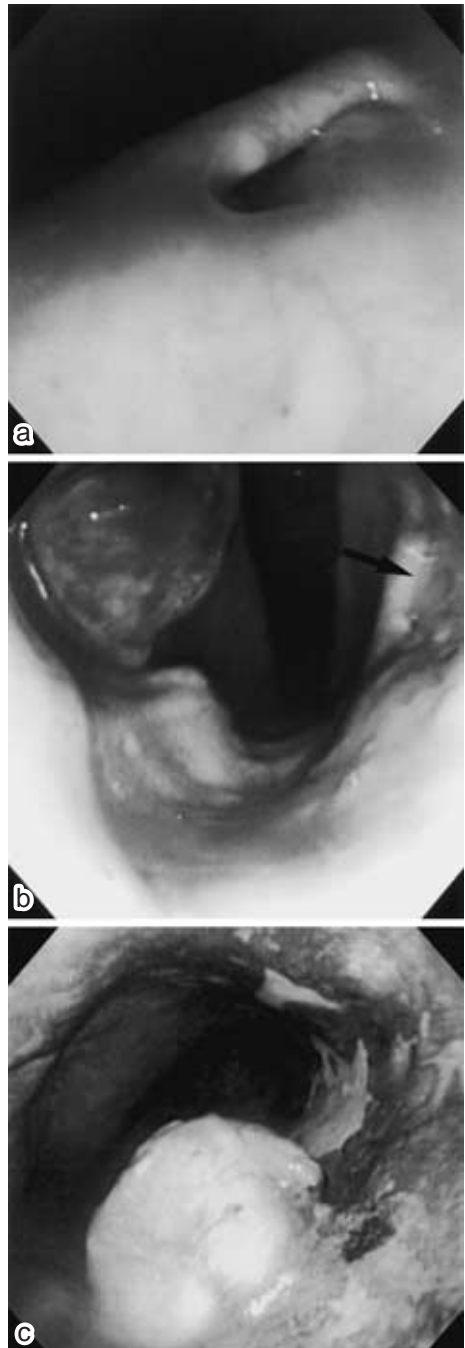
上部消化管内視鏡検査：側視鏡にて門歯列より約30cmの食道前壁に瘻孔を確認した(Fig.2a, b)。また、瘻孔対側に隆起性病変(0-Ip型)を認めたが、生検の結果、低分化型扁平上皮癌であつ

<2003年1月22日受理> 別刷請求先：長井 和之
〒650 0046 神戸市中央区港島中町4 6 神戸市立中央市民病院外科

Fig. 1 Esophagogram showed the fistula (arrow) between the middle thoracic esophagus and the left bronchus (black arrow head). The esophageal tumor facing to the fistula was detected (white arrow head)



Fig. 2 Esophagoscopy revealed an opening of the fistula (arrow) and the esophageal tumor (0-Ip) opposite to the fistula.



た (Fig. 2b , c) . ルゴール散布では隆起性病変尾側に不染帯を認めた (Fig. 2c) .

気管支鏡検査 : 左主気管支の背側に瘻孔を認め、泡沫状の分泌物がみられた (Fig. 3) .

CT 検査 : 胸部食道に腫瘤像を認めた . また , 左主気管支と食道との間に瘻孔と思われる管状構造物を認めた . 左肺下葉には微細な線状像と結節影が多数みられた (Fig. 4) .

以上により食道癌を合併した先天性食道気管支瘻と診断した . 1 月 17 日食道癌を内視鏡的に切除したが、組織学的深達度 sm2 であったため、癌の根治性と食道気管支瘻の治療を考慮し、リンパ節郭清を含めた食道切除が適当と考え、1 月 30 日手術を行った .

手術所見 : 右第 5 肋間にて開胸した . 瘻管は食道前壁と左主気管支との間に約 1cm 長、約 5mm

径の索状物として認めたが、周囲の癒着や癒痕形成は軽度で、瘻管の露出は比較的容易であった

(Fig. 5). 瘻管は気管支側で2重結紮(うち1本は刺通結紮)後,切離した.胸部食道亜全摘,2領域郭清を行い,右胸腔内食道胃吻合術を施行した.

切除標本所見:9×5mmの瘻孔を認めた.瘻孔内腔は食道粘膜上皮で覆われていた.瘻孔の対側にルゴール不染帯を認めた(Fig. 6).

最終病理組織診断: Mt, 0-lp + 0-IIb, 低分化型扁平上皮癌, pT1b(sm2), pN0(0/56), M0 pIM 0 jnfβ, ly0 ,v0 pStage I (Fig. 7a).

Fig. 3 Bronchoscopy showed the fistula with air bubbles at the posterior wall of the left main bronchus (arrow)

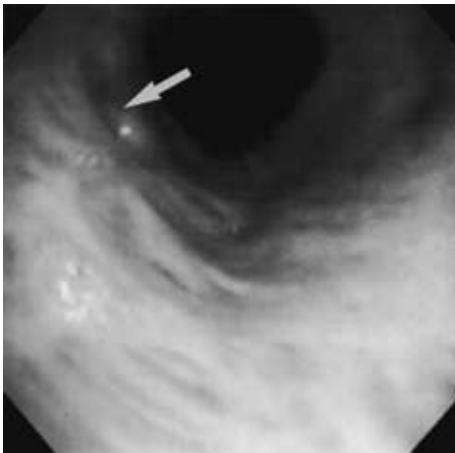
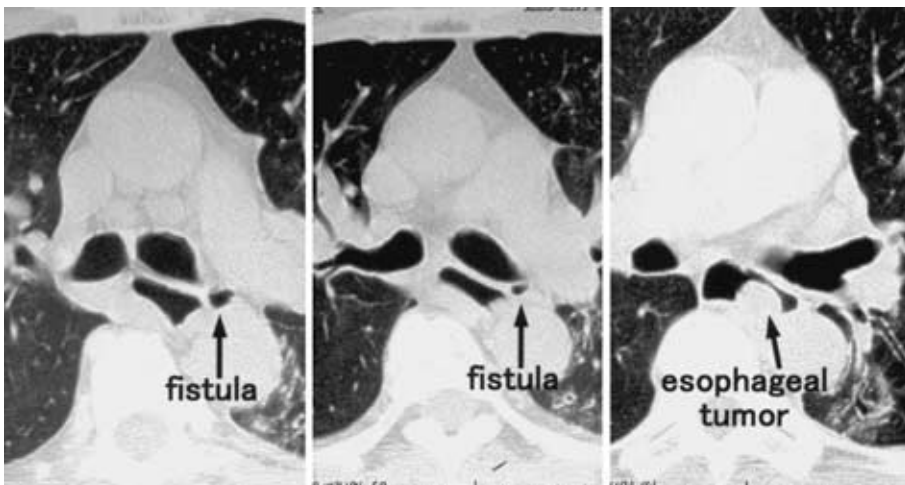


Fig. 4 Chest CT showed the esophageal tumor and the fistula tract between the esophagus and the left main bronchus.



瘻管内腔は正常な重層扁平上皮で覆われており,粘膜筋板を伴っていた.また,周囲には炎症細胞浸潤はほとんど認めなかった(Fig. 7b).

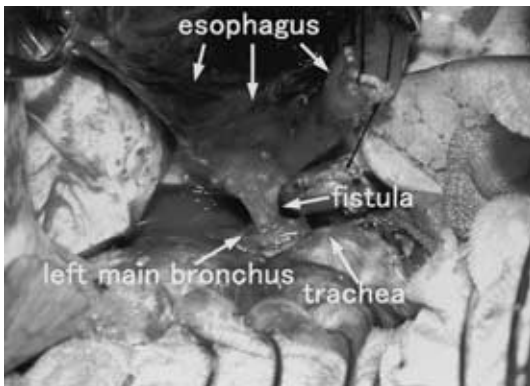
術後経過:経過良好で,術後26日目に退院となった.術後,水分摂取時の咳嗽はなくなった.8か月後の現在,無再発生存中である.

考 察

食道気管支瘻には先天性のものと後天性のものがある.成人発症例は大部分が後天性のものであり,原因としては悪性腫瘍,炎症,外傷などがある.一方,先天性食道気管支瘻は97~99%が食道閉鎖を伴うために大部分が新生児期に診断され²⁾,成人発症例はまれである.本疾患はBrambridgeら³⁾により4型に分類されている.すなわち,I型は広基性の先天性食道憩室を伴い,その先端部と気管支との間に瘻孔を形成するもの,II型は単純に食道と気管支との間に瘻孔を形成するもの,III型は食道と肺嚢胞との間に瘻孔を形成するもの,IV型は肺分画症に伴い食道と分画肺との間に瘻孔を形成するもの,である.

食道気管支瘻を先天性と判定する基準として,Brunner⁴⁾は1)手術時,瘻管の周囲および食道周囲に炎症所見がないこと,2)瘻管にリンパ節の癒着がないこと,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,の3点を挙げ

Fig. 5 Operative findings. No severe adhesion nor inflammatory changes were observed around the fistula.

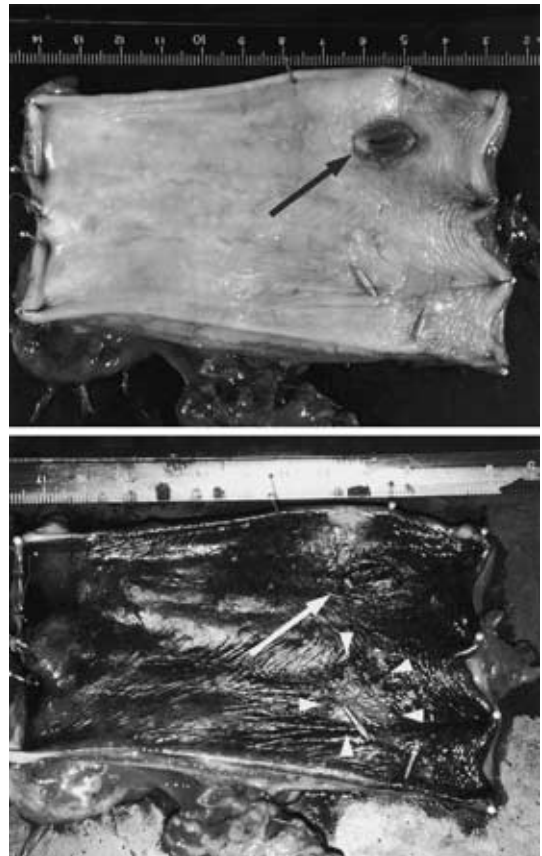


ている。また、唐沢ら⁵⁾の診断基準では1) 幼少時より、水分摂取の際激しい咳嗽発作があり、肺炎をしばしば繰り返したことがある。思春期以後でもその症状が繰り返される、2) 手術時、瘻管周囲にリンパ節の癒着、あるいは炎症所見を認めず、瘻管の露出は極めて容易である、3) 病理組織学的には、瘻管は食道固有の粘膜上皮を有し、筋層を保有している。瘻管そのものには炎症所見がなく、あるいはあっても極めて軽度で、食道粘膜上皮から気管支粘膜上皮への移行像が認められる、4) BraimbridgeのIV型に属するもの、の4点が挙げられており、3)、4)は先天性であることの必要にして十分な条件であるが、これを欠く場合は1)、2)の総合的判断によらなければならない、とされている。

当症例では特徴的な症状のほか、繰り返した肺炎のため、胸部X線、CT検査では左肺下葉に前述の所見を認めた。さらに、手術所見、病理組織学的所見を加えるとBrunner⁴⁾の基準1)~3)、唐沢ら⁵⁾の基準1)、2)を満たし、先天性食道気管支瘻と診断した。Braimbridgeの分類ではII型であった。

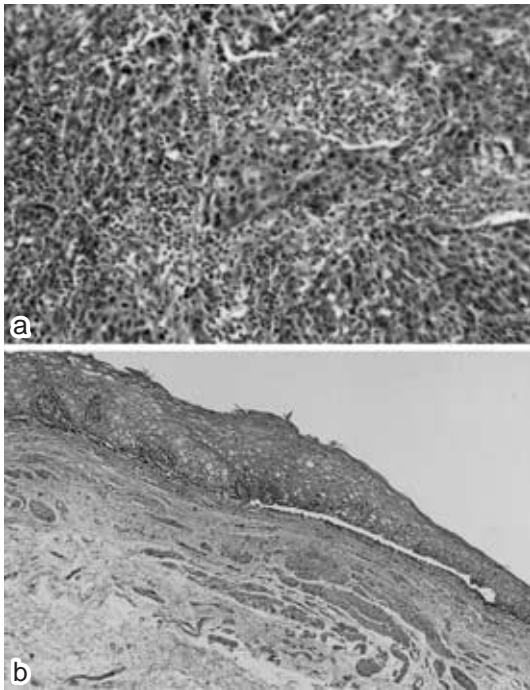
成人発症の先天性食道気管支瘻は比較的にまれな疾患であり、我々が検索しえた本邦報告例(1961年から2001年まで)は142例であった。これに当症例を加えた143例においてはBraimbridge I型が47.5%で最も多く、II型38.5%、III型10.5%、

Fig. 6 Macroscopic findings of the resected specimen showed the fistula (arrow) and 0-IIb lesion, that was not dyed by Lugol's solution, opposite to the fistula (arrow head).



IV型2.8%であった。本疾患と食道癌の合併例は本邦で1例のみ報告があったが¹⁾、その他の悪性腫瘍合併例については、胃癌⁶⁾、肺癌⁷⁾、肺 carcinoid tumorlet⁸⁾などの報告があった。藤田ら⁸⁾の肺 carcinoid tumorlet 合併例では切除された患側肺において、気管支の拡張性変化や肺実質の炎症性線維化を伴う微小な carcinoid tumorlet の散在が認められ、肺切除が有用であったとされている。一方、当症例では瘻孔の食道側開口部の対側に扁平上皮癌を認めた。瘻孔の存在によりその対側となる食道後壁には瘻孔を通じての慢性的刺激(例えばタバコの煙を伴った呼気や喀痰など)が加わっていたと考えられ、これが食道癌発生の一因となった可能性も考えられた。

Fig. 7 (a) SCC (b) Histologically, the lumen of the fistula was covered with the squamous epithelium and surrounded by the muscularis mucosa. (a : H. E. $\times 100$, b : H.E. $\times 200$)



本疾患の治療は開胸下の瘻管切除が一般に行われてきた。また、肺化膿症などの合併例では肺の切除が行われることが多かった⁹⁾。しかし、化学療法が発達した現在では肺切除については慎重に考える必要がある¹⁰⁾。一方、近年では、より低侵襲な治療法として内視鏡下治療^{11)~14)}や胸腔鏡を用いての手術¹⁵⁾¹⁶⁾の報告もみられている。前者では再発例もあり、まだ一般的でないが、後者は今後積極的に導入されていくものと思われる。当症例では深達度 sm2 の食道癌を合併していたため、開胸開腹下でのリンパ節郭清を含めた食道切除術を行い、このとき瘻管を切離した。

今回、先天性食道気管支瘻に食道癌を合併した極めてまれな症例を経験した。当症例では瘻孔と食道癌との位置関係から、瘻孔の存在が癌発生の一因となった可能性も考えられた。先天性食道気管支瘻では、極めてまれと考えられるが悪性腫瘍を合併する可能性についても留意する必要がある

と思われた。

文 献

- 1) 露久保辰夫, 清水利夫, 田村 潤ほか: 先天性食道気管支瘻に合併した食道癌の1例. 医療 51: 143, 1997
- 2) Helmusworth JA, Pryles CV: Congenital tracheoesophageal fistula without esophageal atresia. J Pediatr 38: 610 617, 1951
- 3) Braimbridge MV, Keith HI: Oesophagobronchial fistula in the adult. Thorax 20: 226 233, 1965
- 4) Brunner A: Oesophagobronchiale fisteln. Nunch Med Wschr 103: 2181 2184, 1964
- 5) 唐沢和夫, 沢田勤也, 赤嶺安貞ほか: 成人の先天性食道瘻について. 日胸外会誌 18: 51 61, 1970
- 6) 根本明久, 花上 仁, 浅越辰男ほか: 胃噴門部腺扁平上皮癌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 46: 613 617, 1985
- 7) Campbell P, Salisbury G: Congenital tracheoesophageal fistula associated with carcinoma of the lung in an adult. Ann Thorac Surg 50: 978 979, 1990
- 8) 藤田博正, 川原英之, 日高正晴ほか: Carcinoid tumorlet を合併した成人の先天性食道気管支瘻の1治験例. 日胸外会誌 34: 230 235, 1986
- 9) 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
- 10) 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
- 11) 平尾素宏, 島田 守, 金子 正ほか: 内視鏡下フィ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, 1944
- 12) 高木 融, 佐藤 滋, 黒田直樹ほか: 内視鏡下シアノアクリレート治療が有効であった食道気管支瘻の1例. 日消外会誌 32: 888 891, 1999
- 13) 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
- 14) 清水克彦, 山下芳典, 香川佳寛ほか: 内視鏡治療が奏効せず根治手術を施行した成人の先天性食道気管支瘻の1例. 日臨外会誌 62: 654 658, 2001
- 15) 谷川隆彦, 黒川英司, 木村 豊ほか: 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. 日消外会誌 35: 151 155, 2002
- 16) 小田 斉, 山口 浩, 井上崇弘ほか: 胸腔鏡補助下に切除した先天性食道気管支瘻の成人症例. 消外 23: 233 237, 2000

A Case of Congenital Esophagobronchial Fistula with Esophageal Cancer

Kazuyuki Nagai, Ken Yanagibashi, Tokiharu Miyahara, Noriyuki Okada, Michihiko Wada, Yoshikazu Masai,
Takashi Hashimoto, Shirou Imai, Yutaka Konishi and Tatehiro Kajiwara
Department of Surgery, Kobe City General Hospital

A 63-year-old man with a long history of coughing, particularly when drinking beer, was admitted when esophagography showed an esophagobronchial fistula. He also had frequent episodes of pneumonia. Esophagography, esophagoscopy, and bronchoscopy showed a fistula between the anterior wall of the middle thoracic esophagus and the left main bronchus and an esophageal tumor (0-Ip) facing the fistula. Biopsy of the esophageal tumor showed poorly differentiated squamous cell carcinoma necessitating endoscopic resection. The depth of the cancer was sm2, necessitating open esophagectomy with lymph node dissection and fistula resection. Histologically, the lumen of the fistula was covered with squamous epithelium and surrounded by muscularis mucosa. We diagnosed congenital esophagobronchial fistula (Braimbridge II) based on the patient's history, operative and histological findings. Occurrence of esophageal cancer may be related to the fistula due to their location facing each other.

Key words : congenital esophagobronchial fistula, esophageal cancer, adult

[Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 458-463, 2003]

Reprint requests : Kazuyuki Nagai Department of Surgery, Kobe City General Hospital
4-6 Minatojima-Nakamachi, Chuou-ku, Kobe, 650-0046 JAPAN
