

症例報告

特発性食道破裂術後 20 年目に発生した胸部食道癌の 1 手術例

鶴岡市立荘内病院外科

鈴木 聡 三科 武 二瓶 幸栄 平野謙一郎
渡邊 真実 渡邊 マヤ 松原 要一

特発性食道破裂は比較的まれな疾患であるが、さらに本疾患の術後に異時性に、しかも破裂部位に食道癌が発生することは極めてまれである。われわれは、特発性食道破裂術後 20 年目に破裂部位に一致して進行食道癌が発生した 1 例を経験したので報告する。症例は 60 歳の男性で、20 年前に胸部下部食道左壁の食道破裂に対し、穿孔部単純縫合閉鎖術を施行されたが、縫合不全を合併した。術後 20 年目の 2001 年 10 月、食道破裂部に一致して発生した食道癌の診断をうけた。食道透視では左気管支 (B¹⁰) との瘻孔を認めたが、切除標本の病理学的検索では、気管支および瘻孔には癌細胞を認めなかった。食道破裂術後の縫合不全に端を発し、気管支との瘻孔を形成するなど、長期間の慢性炎症が食道粘膜の悪性変化を来したものと想像された。特発性食道破裂は、食道癌発生のリスクファクターになる可能性があり、術後長期間におよぶフォローアップが必要である。

はじめに

特発性食道破裂 (Boerhaave 症候群) は比較的まれな疾患であるが、さらに本疾患術後に異時性に食道癌が合併することは極めてまれである。われわれが検索しえた限りでは、本邦にその報告例はない。今回われわれは、特発性食道破裂術後 20 年目に、破裂部位に一致して進行食道癌が発生した 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者：60 歳，男性

主訴：嚥下困難

既往歴：20 年前，当科で特発性食道破裂に対し手術施行。2001 年 9 月右肺炎のため当院内科へ入院。

嗜好：日本酒 1 日 2 合，タバコ 20 本を 40 年間。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：20 年前に特発性食道破裂に対して緊急手術を施行した。破裂部位は胸部下部食道左壁で、破裂長 4.0cm，左胸腔に水気胸を認めた。術

式は破裂部の直接縫合閉鎖術を選択した。すなわち、破裂壁を Cut Gut 糸で一層で結節縫合し、さらに左胸腔ドレーンの留置と胃瘻を造設したが、術後縫合不全を発症し、治癒まで 2 か月半を要した。術後 2 年目までは外来通院でフォローされていたが、以後医療機関や検診などの受診歴はなかった。術後 20 年目にあたる 2001 年 10 月嚥下困難を主訴に近医を受診。食道内視鏡で胸部下部食道癌の診断で当科へ紹介受診となり、手術目的に 2001 年 11 月 28 日入院となった。なお、2001 年 9 月の肺炎発症時は、咳嗽などの呼吸器症状を認めたが、肺炎の治癒とともに症状は改善し、当科入院時は咳嗽は全く認めなかった。

血液生化学検査所見：WBC 4,800/ul，RBC 325 × 10⁴/ul，Hb 10.0g/dl，Hct 30.6%，Plt 41.9 × 10⁴/ul と貧血を認めた。TP 6.5g/dl，Alb 3.5g/dl，AST 17IU/l，ALT 10IU/l，ALP 259 IU/l，LDH 130IU/l，γ-GTP 45IU/l，CHE 88 IU/l，T.Bil 0.3mg/dl，Na 137mmol/l，K 4.0 mmol/l，Cl 103mmol/l，BUN 7.2mg/dl，Cre 0.47mg/dl と肝・腎機能に異常はなく、腫瘍マーカーは CEA 2.0ng/ml，CA19-9 2U/ml 以下、

Fig. 1 Esophagography showed the type 2 esophageal carcinoma which fistulized to the left bronchus (B¹⁰) in the left wall of the lower esophagus.



Fig. 2 Endoscopy showed the type 2 carcinoma in the left part of the lower esophagus which was seen 36 cm ~ esophagogastric junction from the incisors.

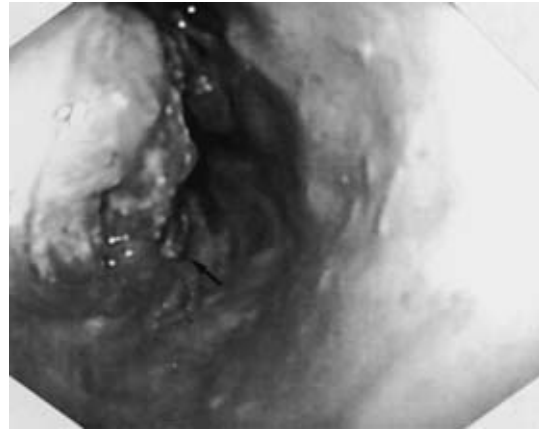
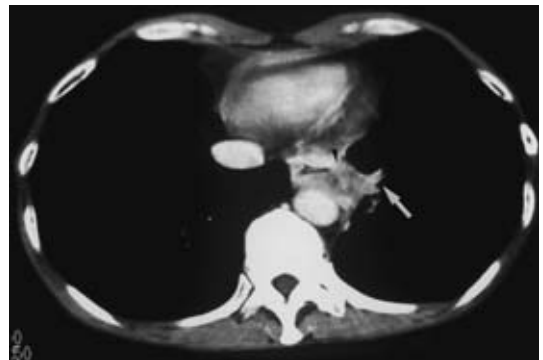


Fig. 3 Chest CT scan revealed the esophageal tumor and the fistula tract between the esophagus and the left bronchus.



SCC 1.7ng/mlで SCC の上昇を認めた。

食道透視所見：胸部下部食道 (Lt) 左壁を中心に長径約 6.5 cm の 2 型の腫瘍が存在し、さらに左気管支 (B¹⁰) へ造影剤の流入を認めため、食道癌の浸潤による食道気管支瘻が疑われた (Fig. 1)。

上部消化管内視鏡所見：門歯列から 36 cm ~ 食道胃接合部までの食道左壁に深い潰瘍を有した 2 型の食道癌を認めた。生検では分化度不明の扁平上皮癌であった (Fig. 2)。

胸部 CT 所見：食道 Lt に全周性の壁肥厚を認め食道癌が疑われた。腫瘍は大動脈に広く接し、さらに左肺 S¹⁰への浸潤を認め T4 の診断。気管前 (106-pre)、気管—気管支リンパ節 (106-tb) の腫大も認め、リンパ節転移が疑われた (Fig. 3)。一方、右上肺野背側に consolidation が認められたが、肺炎後の変化と考えられた。

以上より、T4N3M0、stage IVa の食道癌 (Lt) の診断で、術前化学療法の適応と判断し、LDFP (CDDP 10mg/日、5FU 500mg/日を 5 投 2 休で 8 週間連続)を行った。食道癌発生部位に関しては、20 年前の特発性食道破裂時のレントゲンフィル

ムはすでに破棄されており、保存してあった診療録の手術記事の記載から判断する他はなかったが、今回の病変の主座は前回の食道破裂部位に一致し、その部位を中心に食道癌が発生したものと推測された。

術前化学療法の評価は、食道透視所見では腫瘍に一致した食道壁の不整が軽度となったが、左気管支 B¹⁰との瘻孔は依然として残存していた (Fig. 4)。一方、食道内視鏡では、2 型腫瘍の周堤が低く、かつ、潰瘍底が浅く平滑となり、腫瘍の

Fig. 4 Esophagography after treatment of neoadjuvant chemotherapy (NAC) showed the type 2 carcinoma of which the irregularity of the esophageal wall improved, although the carcinoma remained to fistulize to the left bronchus (B¹⁰) (arrow).



Fig. 5 Endoscopy after treatment of NAC showed the type 2 carcinoma of which the protruded lesion flattened and reduced in size (arrowheads).

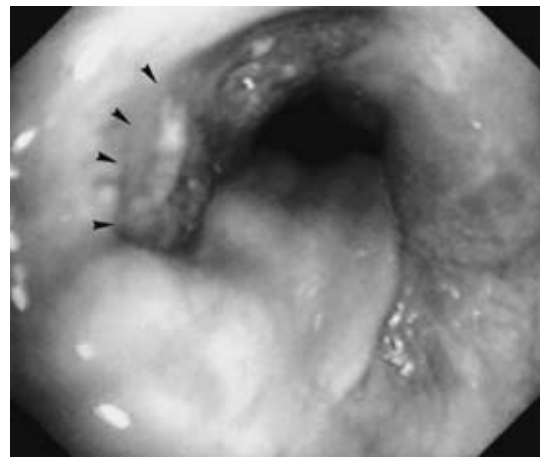
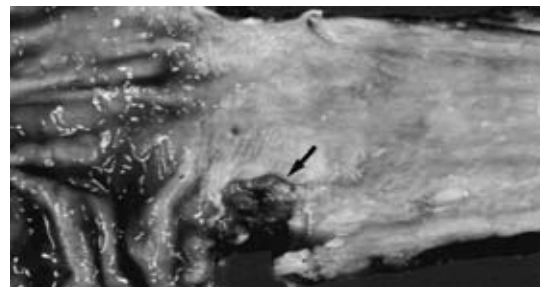


Fig. 6 Macroscopic findings of the resected specimen revealed the type 2 esophageal carcinoma 1.6 cm in maximum length which fistulized to the left bronchus.



部分的な縮小効果が認められた (Fig. 5).

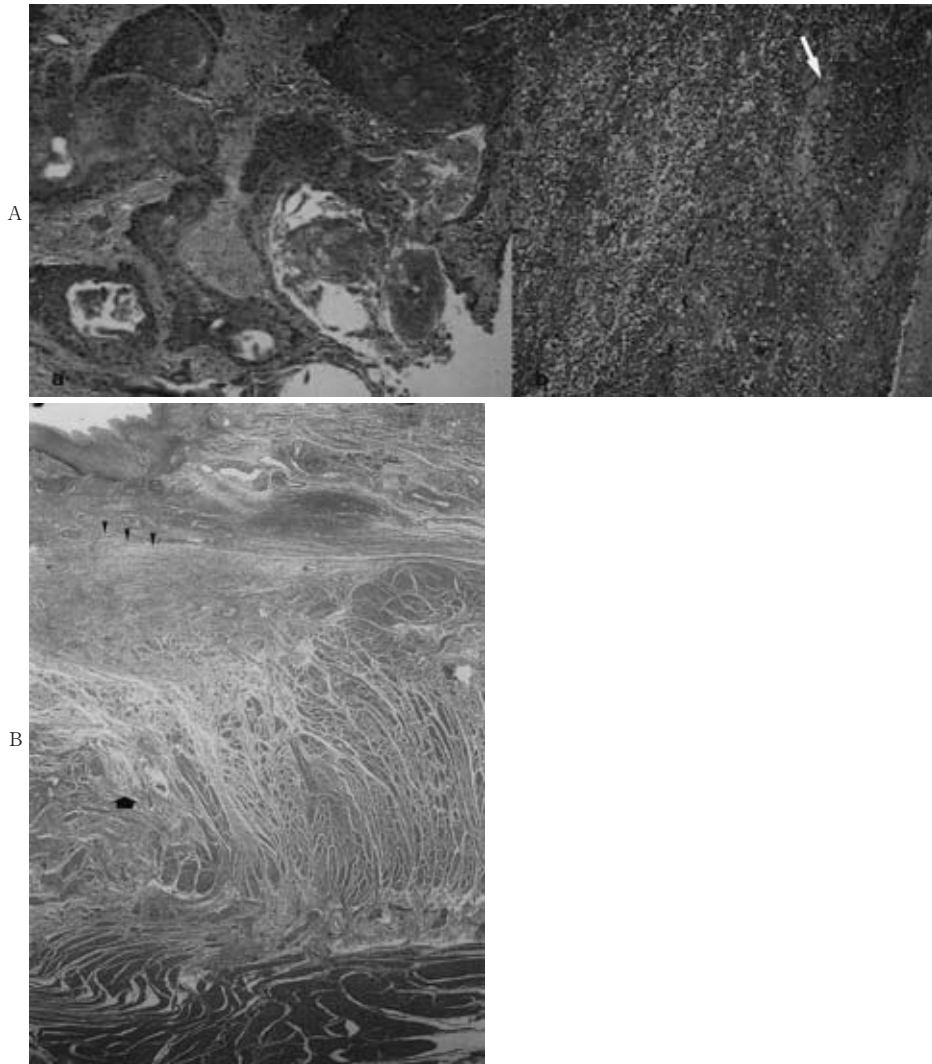
以上より、左気管支との瘻孔の閉鎖は認めなかったが、原発巣の縮小を確認したため、02年2月18日根治手術を行った。

術中所見：胸・腹水は認めなかった。HOP0P10T4 (左気管支への浸潤は認めるが、大動脈への浸潤はなし) N2M0, stage IVaであった。手術は、右開胸によるアプローチでも気管支瘻孔部位を完全に切除できると判断したうえで、今回は普段から慣れ親しんだアプローチである右開胸を選択した。術式は胸部食道切除術、左気管支部分切除 (瘻孔切除)、D2、胃管による再建術 (胸骨後経路) を行い根治手術が可能となった。一方、右上肺野は胸壁に中等度に癒着し、肺実質そのものが一様に硬く触知され、炎症性的変化を思わせた。

病理組織所見：腫瘍は1.6×1.5cm、2型の高分化扁平上皮癌で (Fig. 6), inf γ, pT3, ie(-), ly1, v1, pIM0, pN0で、切除した左気管支には癌の浸潤を認めず、さらに瘻孔にも癌細胞を認めなかった (Fig. 7A)。以上より、stage 2、根治度 A の手術となった。一方、腫瘍に近接する非癌部食道壁の観察では、わずかではあるが輪状筋の構築の乱れと粘膜下層の線維化が認められた (Fig. 7B)。これは食道破裂縫合後の組織変化を示す所見の可能性があり、食道破裂の術部に食道癌が発生したことを強く示唆するものと思われた。

術後経過：術後経過は比較的良好で第40病日

Fig. 7 A: Microscopic findings showed that the resected specimen was diagnosed as a well-differentiated squamous cell carcinoma (a), and that no cancer cell existed in the esophagobronchial fistula (b). B: In the resected specimen, the irregularity of arrangement of esophageal smooth muscle layer (arrow) and fibrosis of the submucosal layer (arrowheads) were microscopically noted.



に退院した。しかし、その後頑固な咳嗽が出現し、2002年5月に施行した胸部CTでは、右肺門から上葉におよぶ径3cmの転移性腫瘍と多発性肝転移を認めた。化学療法として再度LDFPを施行したが効果はなく、術後約半年後の2002年8月17日癌死した。解剖所見は、右肺上葉に6cm大の転移巣1個、左肺に数mm大の転移巣を数個認め、

両側の癌性胸膜炎を認めたが、切除した左気管支の断端を含め、局所再発は認めなかった。また、径1cm大の多発性肝転移を認めた。術前にCTで指摘された右上肺野の炎症性変化と思われた部位と肺転移巣は異なる部位であった。

考 察

特発性食道破裂は比較的まれな疾患である。破

裂部位は下部食道が90%以上で、かつその70%が左側壁に集中している¹⁾。下部食道左壁に破裂が起りやすい原因としては、この部分の筋層が解剖学的に脆弱であることや周囲支持組織の欠如などが関与していると考えられる²⁾。本症例は約20年前の昭和56年に、嘔吐が引き金になった食道破裂のために当科で緊急手術を受けている。当時の診療録の記載によれば、破裂部位は最も頻度の高い胸部下部食道左壁で、長径4cmに及ぶ破裂であった。破裂部を吸収糸による結節縫合で単純閉鎖し、胸腔ドレナージ術を行い、さらに胃瘻造設術を行った。しかし術後縫合不全のため、胸腔内の瘻孔が閉鎖するまで約2か月間を要した。

本症例は今回この食道破裂縫合部に、新たに食道癌が発生した極めてまれな1例と言える。医学中央雑誌でわれわれが検索しえた過去10年間の本邦報告例をみる限り、食道癌に合併した特発性食道破裂の報告は会議録を含め4例³⁾を認めたが、特発性食道破裂術後に、異時性に破裂部に一致して食道癌の発生をみた報告例は1例もなかった。本症例は本邦では稀有な報告例と考えられた。本症例では切除標本の非癌部の組織学的検索で、食道壁輪状筋の配列の乱れと粘膜下層の繊維化を確認できたことで、食道癌の発生部位が食道破裂部位とほぼ一致するものであったことが強く示唆された。

食道破裂部が食道癌の発生母地になりうるかどうかを考察することは、食道癌の発生のメカニズムを知るうえで極めて有用と思われる。しかし、今まで医学中央雑誌からの検索で本邦にその報告例がないことから、現在まで両疾患の因果関係に考察を加えた論評を認めない。一方、食道癌発生のハイリスク群として知られている食道アカラシアの発癌機序は、食道破裂の術後状態と食道癌の発生との関係を考えるうえで興味深く、両者の関連に関し何らかの示唆を与えてくれる可能性はある^{4,5)}。食道アカラシアの発癌の成因としては、食物の貯留や唾液の停滞が食道粘膜を刺激すると同時に細菌の生長を促し、慢性食道炎および食道潰瘍が発生し、この修復機転として粘膜の過増殖状態を引き起こし、慢性刺激が続くことで悪性変化

が生じると考えられている⁶⁾。本症例の場合、あくまでも推測ではあるが、これと同様の機序で食道穿孔部に食道癌が発生した可能性が高いと考えられた。すなわち、縫合不全をきたした食道壁の修復過程で食道の部分的な狭窄を生じた結果、同部の口側に食物の停滞がおこり、細菌の増殖とともに慢性の食道炎の状態が長期間続いたものと想像された。左気管支との瘻孔部には組織学的に癌細胞を認めなかったことから、癌の浸潤(T4)ではなく、食道破裂術後に一度は閉鎖した瘻孔が何らかの原因で再開通したものと考えられ、慢性の炎症が長期間にわたり持続していたことを裏付けるものであった。このような病態が、食道アカラシアの発癌機序に共通する原因の一つではないかとも考えられるが、繰り返すが本仮説はあくまでも推測の域を出ないため、食道破裂が食道癌の危険因子になりうるか、今後の地道な臨床研究の成果の蓄積が期待される。さらに、本症例の場合外的要因として食道破裂術後も飲酒、喫煙を習慣としていた影響が、食道癌発生のリスクをさらに高めたものと考えられた。そもそも、特発性食道破裂発生の危険因子としてアルコールや喫煙が上げられるが、その意味ではすでに患者は食道癌発生の危険因子を複数兼ね備えていたうえに、食道破裂術後に縫合不全を合併し、その後も気管支との瘻孔形成を伴う慢性の炎症が持続したことが、食道癌の発生に強く関与したものと考えられた。

特発性食道破裂はまれな疾患ではあるが、食道癌の発生に関する強いリスクファクターになりうる可能性もあることから、食道破裂術後は長期間におよぶフォローアップが必要である。特に、特発性食道破裂術後に穿孔部の縫合不全を合併した症例に対しては、癌の発生を早期に捉えるため術後慎重な経過観察が必要と思われた。

切除標本の病理学的検索で御指導いただきました。鶴岡市立荘内病院病理科 深瀬真之先生に深謝致します。

文 献

- 1) 貴島正邑：いわゆる特発性破裂の病態と治療—特発性食道破裂：本邦報告200例の集計から—。臨外 42：335—341, 1987
- 2) 関川敬義, 河野浩二, 飯塚秀彦：Boerhaave's syndromeと食道破裂, 穿孔。臨消内科 15：275—

- 281, 2000
- 3) 横田良一, 秦 温信, 松岡伸一ほか: 食道癌に合併した特発性食道破裂の1例. 日臨外会誌 **63**: 1149—1152, 2002
- 4) 八坂 朗, 嶺 博之, 雷 哲明ほか: 本邦における良性食道疾患に併発した食道癌. 日消外会誌 **17**: 681—689, 1984
- 5) 平島 毅: 食道アカラシアの病態と外科的治療. 日消外会誌 **20**: 2072—2081, 1987
- 6) Rake G: Epithelioma of the esophagus in association with achalasia of the cardia. *Lancet* **2**: 682—683, 1931

A Case of Esophageal Cancer Associated with Postoperative Spontaneous Esophageal Rupture Twenty Years Earlier

Satoshi Suzuki, Takeshi Mishina, Ko-ei Nihei, Ken-ichiro Hirano,
Mami Watanabe, Maya Watanabe and Yo-ichi Matsubara
Department of Surgery, Tsuruoka Municipal Shonai Hospital

Cases of spontaneous rupture of the esophagus are relatively rare and those of esophageal cancer associated metachronously with spontaneous rupture of the esophagus extremely rare. We report a case of advanced esophageal cancer occurring at the site of an esophageal rupture 20 years postoperatively. A 60-year-old man diagnosed with spontaneous rupture of the esophagus and operated on 20 years earlier had an approximately 4cm vertical perforation in the left wall of the lower esophagus. The ruptured esophageal wall was directly closed layer to layer, but anastomotic leakage kept the patient hospitalized for 2 months. Twenty years after surgery, he was diagnosed with esophageal cancer fistulized to the left bronchus (B¹⁰), necessitating transthoracic esophagectomy by right thoracotomy and resection of the esophagobronchial fistula. The resected specimen was diagnosed histologically as well-differentiated squamous cell carcinoma but without cancer cells in regional lymph nodes or the fistula. Chronic continuous inflammation of the rupture site with leakage apparently induced malignant change in the esophageal mucosa. Spontaneous rupture of the esophagus must thus be considered a risk factor in esophageal cancer, necessitating long, meticulous postoperative follow-up after surgery for spontaneous rupture of the esophagus.

Key words : spontaneous rupture of the esophagus, esophageal cancer, operation

[*Jpn J Gastroenterol Surg* **38** : 300—305, 2005]

Reprint requests : Satoshi Suzuki Department of Surgery, Tsuruoka Municipal Shonai Hospital
4-20 Izumi-cho, Tsuruoka City, 997-8515 JAPAN

Accepted : October 19, 2004