

症例報告

食道縦隔瘻を併発し食道切除術を行った良性食道潰瘍の1例

久留米大学医学部外科学, 大牟田市立総合病院外科*

的野 吾 田中 寿明 末吉 晋* 田中 優一
津福 達二 西村 光平 白水 和雄 藤田 博正

症例は49歳の男性で、1997年9月頃より嚥下困難出現し、近医で食道潰瘍の診断を受け、H₂-blocker および proton pump inhibitor 内服で約6年ほど保存的加療を行っていたが軽快せず、狭窄症状が出現したため、2003年7月当院紹介となった。当院にて精査したが、逆流性食道炎は存在せず、また24時間pH測定検査でも酸の逆流はなく、食道潰瘍の原因は判明しなかった。潰瘍は次第に悪化し、狭窄が強くなっていることから手術を勧めたが、患者は手術を拒否し、以来内視鏡下バルーン拡張術にて経過観察していた。2007年8月、背部痛が出現し、精査にて、食道潰瘍穿通による縦隔炎と診断し、右開胸による食道切除術を施行した。潰瘍周囲は強固に癒着しており、潰瘍底は大動脈であった。術後経過は良好で、第27病日に退院した。難治性食道潰瘍が穿通し縦隔炎を併発した症例に対し食道切除を行い良好な経過を得たので報告する。

はじめに

食道潰瘍の原因には、逆流性食道炎、Barrett食道、薬剤性食道炎、腐蝕性食道炎¹⁾²⁾、感染性食道炎、物理的食道炎³⁾、全身性疾患に伴う食道炎などがある。なかには原因不明で治癒困難な食道潰瘍症例もあるが、食道切除に至ることは少ない。今回、我々は穿通性縦隔炎を併発した非常にまれな難治性食道潰瘍の切除例を経験したので報告する。

症 例

患者：49歳，男性

主訴：通過障害および背部痛

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：1997年9月頃より嚥下困難出現し、近医で食道潰瘍の診断を受け、H₂-blocker および proton pump inhibitor (以下、PPI) 内服で保存的加療を行っていた。2003年7月頃より狭窄症状が増悪してきたため、当院紹介となった。上部消化管造影検査にて胸部中部食道に狭窄を認め、上部消化管内視鏡検査では門歯列より30cm後壁主体

に潰瘍と肉芽を認め狭窄していたが、その肛門側に逆流性食道炎の所見は認めなかった。Cytomegalovirus (以下、CMV)、Herpes simplex virus (以下、HSV)、結核菌などの感染は認めなかった。24時間pH測定検査では胃酸の食道内への逆流も認めず、Barrett食道も存在しなかった。潰瘍部の生検においても癌細胞は検出されなかった。薬剤抵抗性の食道潰瘍であり、しかも次第に狭窄は悪化傾向であったことから、この時点で食道切除術を勧めた。しかし、患者は手術を希望せず、PPI内服とバルーン拡張術にて、この後も経過観察していた。バルーン拡張術の頻度は、2003年当初は4~5か月に1回程度であったが、手術前の1年間は平均1~2か月に1回の割合に達していた。

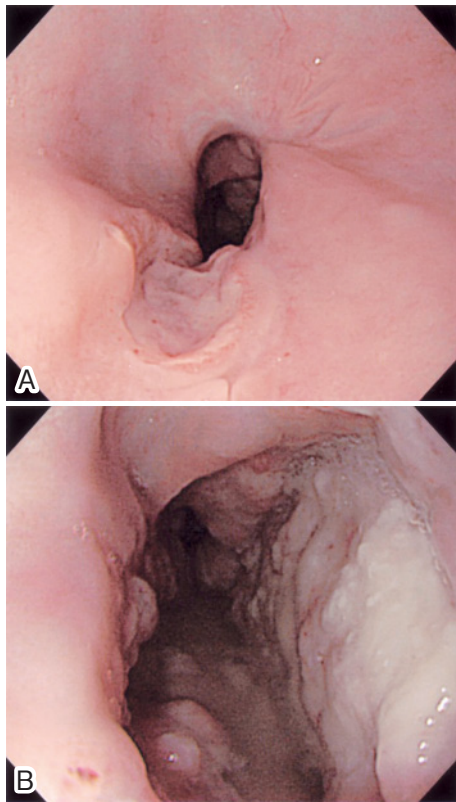
2007年8月上旬より背部痛が出現、38度台の発熱を認めるようになった。しかし、自己判断で消炎鎮痛剤を服用していた。8月下旬になり、背部痛の増強と狭窄症状が増悪してきたため、当院受診した。

現症：身長175cm，体重50kg，背部痛と38.7度の発熱。Performance status：0。

血液生化学所見：WBC 17,000/mm³，CRP

<2008年4月23日受理>別刷請求先：的野 吾
〒830-0011 久留米市旭町67 久留米大学医学部外科学

Fig. 1 Endoscopy showed a stenosis (A) and a deep ulcer (B) on the posterior wall of the esophagus from 30 cm to 34 cm from the incisor.



10.63mg/dlと炎症所見は上昇, RBC $368 \times 10^4 / \text{mm}^3$, Hb 12.7g/dlと軽度貧血を認めるが, その他明らかな異常値は認めなかった. 腫瘍マーカーはCEA, SCCともに正常範囲であった.

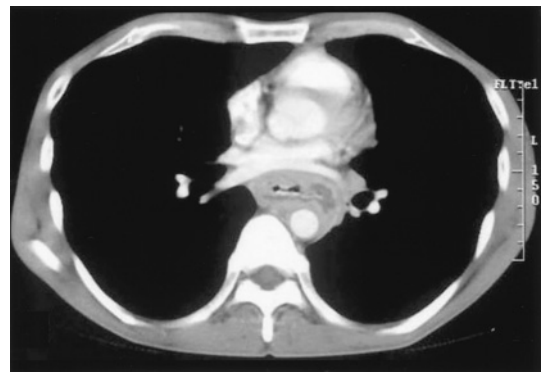
上部消化管内視鏡検査: 門歯列より30cm後壁に潰瘍による狭窄を認め(Fig. 1A), その奥には白苔を伴った深い潰瘍を認めた(Fig. 1B).

上部消化管造影検査: 胸部中部食道にガストログラフィンの貯留を認める深い潰瘍を認めた.

胸部CT: 食道壁外に膿瘍を疑う所見を認め, 大動脈への炎症の波及が疑われた(Fig. 2).

臨床経過: 以上より, 食道縦隔瘻・限局性の縦隔炎と診断し, 緊急入院とした. 絶食による中心静脈栄養管理, 抗生剤(5日間)とPPI投与にて経過観察した. 入院7日目には, 発熱症状は認めず, WBC $4,300 / \text{mm}^3$, CRP 0.84mg/dlと炎症所見は

Fig. 2 Enhanced CT showed the suspicion of abscess between esophagus and aorta, and that an inflammation spreaded around the aorta.



改善した. しかし, 入院後12日目の上部消化管造影検査にて明瞭な食道縦隔瘻が確認され, 保存的加療は困難と判断した(Fig. 3). インフォームドコンセントののち, 手術を行うこととなり, 2007年9月中旬に右開胸による食道切除術を施行した.

手術所見: 食道潰瘍部周囲は発赤強く胸膜肥厚を認め周囲組織と強固に癒着していた(Fig. 4A). まず, 潰瘍から離れた口側, 肛門側食道を周囲組織より遊離した. 食道の潰瘍部と周囲との癒着は, 気管分岐部より尾側3cmの部位より7cmほど肛門側に続き, 大動脈・心嚢側が器質化して癒着していた. 潰瘍部の周囲より心嚢を剥離し, さらに炎症により硬く厚くなった下肺静脈を剥離した. 食道と大動脈の間は器質化した硬い癒着組織となっており, 同部で食道と大動脈を完全に遊離し, 食道を切除した. 潰瘍底は大動脈外膜に及んでいた(Fig. 4B). 明らかな膿汁の貯留は認めなかった. 胸腔および潰瘍底近傍の後縦隔にドレーンを留置し, 閉胸した. 再建経路は胸壁前経路とし, 食道胃管吻合術を施行した. また, 空腸瘻を造設した.

病理組織学的検査所見: 摘出標本では, 潰瘍部の穿孔を認めた(Fig. 5). 病理組織学的検査所見では, 穿孔部を主体に粘膜下層に線維化を認め, 炎症細胞が外膜にまで及んでいた. 非特異的な炎症所見のみで病理組織学的診断は良性食道潰瘍で

Fig. 3 Esophagogram showed leakage of contrast medium from the left wall of middle portion of the thoracic esophagus.



あった。

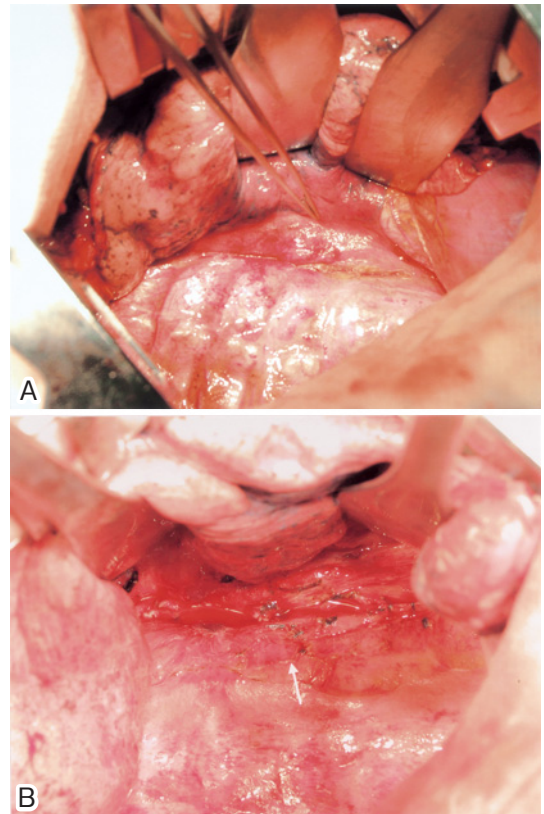
術後経過：経過良好で、第8病日に吻合部造影を行い縫合不全がないことを確認した。第12病日にCTにて縦隔に遺残膿瘍がないことを確認して後縦隔ドレーンを抜去し、合併症など併発することもなく、第27病日に退院した。その後5か月経過しているが経過良好で、外来経過観察中である。

考 察

食道炎の診断基準として、内視鏡検査において、発赤などの色調の変化、びらん、肥厚、潰瘍、狭窄などの所見が認められる状態⁹⁾とされている。その原因により、逆流性食道炎、Barrett食道、薬剤性食道炎、腐蝕性食道炎¹²⁾、真菌・ウイルス・結核などの感染による感染性食道炎、異物の停滞³⁾や放射線照射による物理的食道炎、膠原病などの全身性疾患に伴う食道炎などに大別され、これらが原因となって潰瘍を形成する。また、良性あるいは悪性腫瘍との鑑別も重要⁵⁾である。

癌以外の食道の穿孔・穿通の原因⁶⁾としては、特発性食道破裂、医原性、異物(魚骨、薬剤など)、腐蝕性(化学物質の誤飲)、外傷などによるものが

Fig. 4 Operative findings. The ulcer portion in the esophagus was tightly adhered the adjacent tissues (A). The esophageal ulcer was perforated and the bottom of ulcer (arrow) was the aorta (B).

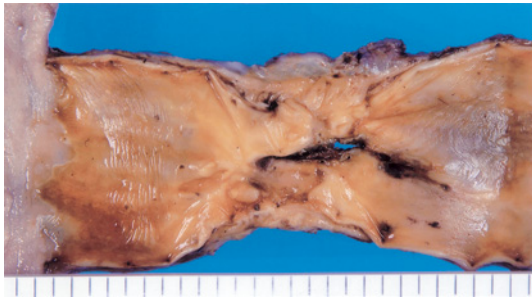


多いとされている。

良性食道潰瘍の穿孔例(前記原因は除く)は、医学中央雑誌(1983年~2007年末:会議録は除く)で「食道潰瘍」をキーワードとして検索し、さらに「穿孔」「穿通」「食道大動脈瘻」「食道縦隔瘻」「食道肺瘻」「食道気管支瘻」でおのおの絞って検索したところ11例の報告があり、原因の内訳は、逆流性食道炎およびBarrett食道が6例^{7)~12)}、放射線性が2例¹³⁾¹⁴⁾、ウイルスが2例¹⁵⁾¹⁶⁾、全身性疾患が1例¹⁷⁾であった。そのうち、食道切除を行った報告は1例⁷⁾であった。

また、PubMed(上記と同期間)で「esophageal ulcer」をキーワードとして検索し、さらに「perforation」「fistula」でおのおの絞って検索したところ

Fig. 5 The esophageal resected specimen showed a deep ulcer with perforation.



約126例の報告があり、原因の内訳は、逆流性食道炎およびBarrett食道が約100例^{(8)~(22)}と圧倒的に多く、ついで感染症9例⁽²³⁾、全身性疾患4例⁽²⁴⁾、異所性胃粘膜病変2例⁽²⁵⁾などであった。

良性食道潰瘍で切除に至るまでの症例は少ない。良性食道潰瘍が穿孔を起こして縦隔炎などの感染を併発していても、本邦では保存的加療で軽快・治癒した症例^{(8)~(11)(15)}の報告が多く、ドレナージなどを含めた手術に至る症例⁽⁷⁾⁽¹³⁾⁽¹⁶⁾は少ない。しかし、海外ではドレナージ⁽²³⁾、瘻孔切除⁽²⁴⁾、パッチ閉鎖⁽²³⁾、食道切除^{(19)~(22)}などの外科処置を行った報告例も少なくない。

当症例は前医において長期にわたり治療抵抗性の食道潰瘍で、しかも狭窄症状が強くなっていた。食道胃内のpH測定検査による胃酸の逆流およびビリテックによる検査にて胆汁の逆流を認めないことより、逆流性食道炎の存在は否定的で、Barrett食道も存在しなかった。また、感染症など含めた他の食道炎・食道潰瘍を来す原因も判明しなかった。このため、原因不明の特発性食道潰瘍と診断した。

患者は手術を希望せず、結局当院でも、PPIなどの内服投与と狭窄悪化時のバルーン拡張術にて経過観察されたが、最終的には食道穿孔による縦隔炎を併発し開胸による手術を行うこととなった。PPI投与に関しては、胃酸逆流は認めなかったが、当初は内服にて症状が軽快していたため投与を続行していた。

良性食道狭窄の治療法としては、バルーン拡張

術、外科手術などがある。バルーン拡張術は時に長期的効果が得られることもあるが、一般的に根治的治療ではなく、一過性に症状改善が得られるのみであり、頻回に行う必要性があり、また拡張術に伴う穿孔の可能性がある。外科手術としては、バイパス術あるいは切除再建術で、食道切除の際のアプローチとしては開胸もしくは非開胸術式がある。周囲臓器への炎症波及が軽度であれば、非開胸食道抜去術も可能であるが、炎症が高度の場合は開胸術式を選択すべきである。また、良性食道狭窄に対する食道ステント挿入術の症例も散見⁽²⁶⁾⁽²⁷⁾されているが、再狭窄や穿孔などの合併症を併発した症例⁽²⁸⁾⁽²⁹⁾も認め、良性食道狭窄に対しては適応とすべきではない。食道ステント挿入術はあくまで進行食道癌が適応であると考えている⁽³⁰⁾。

当症例の場合は、10年に及ぶ治療抵抗性の難治性潰瘍であり、徐々に狭窄は強くなり潰瘍底は深くなってきた。バイパス術では、経口摂取は可能とはなるが、難治性の潰瘍は遺残し、大動脈穿孔が強く危ぐされたため、食道切除術を選択した。術中剥離の際に大動脈損傷の可能性も考えられ、手術前に大動脈ステント留置も考慮したが、大動脈ステントを留置した場合、のちのステント抜去は不能で、ステント感染も危ぐされるため、大動脈ステント留置は行わなかった。

切除後の病理組織学的検索においては、穿孔周囲は炎症性の肉芽細胞浸潤を認め、同部を中心に広い範囲で筋層に達する潰瘍が形成されており、特異的な炎症所見や腫瘍性変化は認めなかった。以上より、病理組織学的にもその原因を特定することは困難なため、最終的には原因不明の特発性食道潰瘍と診断せざるをえなかった。

このような、難治性で進行性の原因不明食道潰瘍に対しては、食道穿通による縦隔炎などを併発する前に、食道切除を行うべきであると思われる。

文 献

- 1) 森 直樹, 藤田博正, 末吉 晋ほか: 強アルカリ飲用による腐蝕性咽頭食道狭窄の2例. 日消外会誌 38: 1684—1689, 2005
- 2) 津福達二, 田中寿明, 末吉 晋ほか: ウォッカの大量飲酒により腐蝕性食道狭窄を生じた1例. 日消外会誌 40: 1661—1665, 2007

- 3) 的野 吾, 藤田博正, 末吉 晋ほか: 特集 癌と紛らわしい各領域の諸病変 食道癌と紛らわしい食道疾患. 臨外 58 : 1199—1204, 2003
- 4) 平嶋 毅: 潰瘍と炎症. 良性の食道疾患. 南江堂, 東京, 1981, p237—251
- 5) 吉田 操, 門馬久美子, 葉梨智子ほか: 食道の炎症と潰瘍 癌との鑑別に迷う食道潰瘍. 消内視鏡 8 : 704—711, 1996
- 6) 中川儀英, 澤田祐介, 幕内博康: 食道穿孔. 救急医 22 : 645—647, 1998
- 7) 星野和義, 小野公誉, 木村 修ほか: 胸部食道全摘術及び右肺下葉切除術の2度の手術によって治癒した食道気管支瘻の1例. 日臨外医会誌 58 : 1230—1235, 1997
- 8) 藤田知之, 望月靖弘, 牛山俊樹ほか: 保存的治療で治癒した逆流性食道炎による食道穿孔の1例. 日臨外会誌 61 : 352—355, 2000
- 9) 高木邦夫, 塚原康生, 福島幸男ほか: 食道気管支瘻を合併した巨大食道潰瘍. Gastroenterol Endosc 45 : 132—137, 2003
- 10) 佐々木淳, 比企 誠: 胸腔内穿孔した食道潰瘍の1例. 埼玉医会誌 39 : 256—260, 2004
- 11) 南雲大暢, 高木英恵, 玉井博修ほか: Barrett 潰瘍に合併した食道気管支瘻の1例. Prog Dig Endosc 消内視鏡の進歩 66 : 44—45, 2005
- 12) 呂 彩子, 女屋光基, 景山則正ほか: 食道潰瘍による大動脈食道瘻の1剖検例. 法医の実際と研 47 : 97—101, 2004
- 13) 上川康明, 井上文之, 猶本良夫ほか: 縦隔への術中照射により放射線食道潰瘍から食道気管支瘻を生じた肺癌の1治験例. 日呼外会誌 9 : 891—896, 1995
- 14) 生田 肇, 浜辺 豊, 成田晃一ほか: 早期食道癌放射線治療7ヵ月後に発症した穿孔性食道潰瘍の1例. 癌の臨 43 : 323—328, 1997
- 15) 大村賢治, 松田香織, 斉藤真理ほか: ヒト免疫不全ウイルス感染患者に認められた穿孔を伴う巨大食道潰瘍の1例. Prog Dig Endosc 消内視鏡の進歩 62 : 70—71, 2003
- 16) 芝木泰一郎, 熱田義顕, 森本典雄: サイトメガロウイルス感染の関与が疑われた食道潰瘍穿孔の1例. 日臨外会誌 67 : 1777—1780, 2006
- 17) 伊藤揚荘, 小川博遊, 山内康平ほか: 食道潰瘍の大動脈穿孔にて死亡した進行性全身性硬化症の1例. 日臨免疫会誌 11 : 417—421, 1988
- 18) Mo KM, Craig GM, Clark JV et al : Sudden death from perforation of a benign oesophageal ulcer into a major blood vessel. Postgrad Med J 64 : 687—689, 1988
- 19) Guillem PG, Porte HL, Saudemont A et al : Perforation Barrett's ulcer : a change in esophageal surgery. Ann Thorac Surg 69 : 1707—1710, 2000
- 20) Nigro JJ, Bremner RM, Fuller CB et al : Perforating Barrett's ulcer resulting in a life-threatening esophagobronchial fistula. Ann Thorac Surg 73 : 302—304, 2002
- 21) Guillem P, Porte H, Techer E et al : Aorto-esophageal fistula of uncommon origin : perforation of a Barrett's ulcer. Dis Esophagus 16 : 259—260, 2003
- 22) Rantanen TK, Sihvo EI, Rasanen JV et al : Gastroesophageal reflux disease as a cause of death is increasing : analysis of fatal cases after medical and surgical treatment. Am J Gastroenterol 102 : 246—253, 2007
- 23) Rathinam S, Kanagavel M, Tiruvadanan BS et al : Dysphagia due to tuberculosis. Eur J Cardiothorac Surg 30 : 833—836, 2006
- 24) Morimoto Y, Tanaka Y, Itoh T et al : Esophagobronchial fistula in a patient with Behçet's disease : report of a case. Surg Today 35 : 671—676, 2005
- 25) Kohler B, Köhler G, Riemann JF : Spontaneous esophagotracheal fistula resulting from ulcer in heterotopic gastric mucosa. Gastroenterology 95 : 828—830, 1988
- 26) 山内 一, 島本 強, 岩田 尚ほか: 腐蝕性食道炎による良性食道狭窄に対する expandable metallic stent の使用経験. 日臨外会誌 60 : 86—90, 1999
- 27) 山本正樹, 松崎圭祐, 岡本史樹ほか: 食道ステント留置にて ADL 改善を認めた腐蝕性食道炎の1例. 日臨外会誌 65 : 2342—2346, 2004
- 28) 田川 努, 伊藤重彦, 松尾誠司ほか: 食道狭窄に対する expandable metallic stent の3例と人工食道の3例. 日臨外医会誌 58 : 2851—2855, 1997
- 29) 牧野知紀, 藤谷和正, 平尾素宏ほか: ステント挿入により縦隔炎と食道気管支瘻を形成した腐蝕性食道炎の1例. 日臨外会誌 66 : 622—626, 2005
- 30) 田中寿明, 末吉 晋, 笹原弘子ほか: 進行・再発胸部食道癌症例に対するステント治療成績. 日消外会誌 39 : 1465—1471, 2006

Benign Esophageal Ulcer with Esophago-Mediastinal Fistula Successfully treated by Esophagectomy

Satoru Matono, Toshiaki Tanaka, Susumu Sueyoshi*, Yuichi Tanaka,
Tatsuji Tsubuku, Kohei Nishimura, Kazuo Shirouzu and Hiromasa Fujita
Department of Surgery, Kurume University School of Medicine
Department of Surgery, Omuta City General Hospital*

We report a case of benign esophageal ulcer with an esophagomediastinal fistula treated by esophagectomy. A 49-year-old man with an esophageal ulcer who had undergone conservative therapy with H₂-blocker or PPI at a local hospital since September 1997 was referred in July 2003 due to deterioration of the ulcer and esophageal stenosis developing in response to medication. The cause was not clarified by 24-hour pH monitoring, pathological test, or other examination, indicating surgery that the man declined. He continued to undergo endoscopic balloon dilation and PPI administration, but suffered back pain and severe dysphagia in August 2007 due to mediastinitis after the ulcer perforated, necessitating surgery, which he agreed to. During esophagectomy via right thoracotomy, the ulcerous esophagus was found to tightly adhere to adjacent tissues. The ulcer perforated reached to the aorta. The postoperative course was uneventful, and he was discharged on postoperative day 27.

Key words : benign esophageal ulcer, esophagomediastinal fistula, esophagectomy

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 41 : 1892—1897, 2008]

Reprint requests : Satoru Matono Department of Surgery, Kurume University School of Medicine
67 Asahimachi, Kurume, 830-0011 JAPAN

Accepted : April 23, 2008