症 例

成人に発症した食道憩室を伴う
先天性食道気管支瘻の3手術例大淵 俊朗, 福島 鼎, 三苦 有介, 白石 裕治, 相良 勇三
小松彦太郎, 片山 透, 蛇沢 晶*

要 旨

難治性肺炎を主症状とする、食道憩室を伴った成人の先天性食道気管支瘻の3例を外科治療を中心に検討した。症例は72歳女性（症例1）、58歳女性（症例2）、および49歳男性（症例3）である。病悩期間は1年ないし12年であった。症例2、3は幼少時より飲水後むせることがあった。また症例3は23歳時に難治性肺炎のため右中葉切除術および右下葉部分切除術を受けた。手術は、症例1では瘻管・食道憩室切除術のみを施行したが、症例2、3では、右下葉あるいは右残存肺の合併切除術を追加した。術中所見ではいずれの症例も瘻管周囲に炎症所見はなく、組織学的所見でも瘻管に正常食道粘膜や筋層を認めたため先天性食道気管支瘻と判断した。術後経過は3例とも順調で、肺炎は再発しなかった。本疾患の外科治療は瘻管切除術と抗生物質の投与で治療可能であるため、肺切除術は必ずしも行わなくてもよいと考えられた。

索引用語：先天性食道気管支瘻，食道憩室，Brambridge I型，難治性肺炎
congenital esophago-bronchial fistula, esophageal diverticulum, Brambridge's type I, recurrent aspiration pneumonia

はじめに

食道憩室を伴った先天性食道気管支瘻はBrambridge I型と分類され¹⁾，成人には比較的まれな疾患である²⁻¹⁰⁾。最近われわれは72歳女性に発症した食道気管支瘻による難治性肺炎を経験したので，以前経験した2例と比較し，外科治療を中心に若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1：72歳女性。

主 訴：繰り返す肺炎。

現病歴：60歳頃から食事時にむせるようになり，年に数回肺炎を起こしたが抗生物質の服用で軽快していた。1年前から肺炎が頻回になり，数カ月にもわたり38℃におよぶ高熱や肺炎症状が続いたため1992年10月7日に入院した。

現 症：身長140 cm，体重50 kg。聴診で右下肺野の呼吸音の減弱を認めた。

入院時検査成績：WBC 7700/mm³，RBC 300×10⁴/mm³，Hb 8.6 g/dl，Hct 27.5%，Plt 30.5×10⁴/mm³と貧血を認め，CRP 15.8 mg/dlと炎症反応が強陽性であった。呼吸機能検査はVC 1.15 l，%VC 56.7%，FEV_{1.0} 0.89 l，FEV_{1.0}% 75.4%と拘束性障害を認めたが，室内気での血液ガスはpH 7.435，P_{co2} 33.3 mmHg，P_{o2} 88.1 mmHg，Sa_{o2} 97.0%であり，過換気を認めた。

胸部X線写真および胸部CT：右下肺野に網

Fig. 1 Chest X-ray film on admission shows consolidation in the right lower lung field.

Fig. 2 Chest CT scan shows the atelectasis of the right lower lobe.

状陰影と含気の低下を認め、とくに右下葉は無気肺像を呈していた (Fig. 1, 2).

食道造影所見：中部食道に食道憩室があり、先端に瘻管が認められた。瘻管は直径 1 mm, 長さ 3 mm で、中間幹に開口していた (Fig. 3).

気管支鏡所見：右上葉支口から 2 cm 末梢側の中間幹に僅かな凹みが存在し、食道内に散布

Fig. 3 Esophagography shows a diverticulum in the midportion connected with the right intermediate bronchus.

Fig. 4 Bronchofiberscopy shows the opening of the fistula from which the staining solution (Indocyanine green) flows.

Fig. 5 A fistula and the esophageal diverticulum were dissected easily.

Fig. 6 Histological appearance of normal esophageal mucosa, muscular tissue and glands.

したインドシアニンググリーンがここから流出した (Fig. 4)。瘻孔の周囲には軽度の炎症があり、中下葉支には膿性痰が認められた。

以上の所見から食道気管支瘻による誤嚥性肺炎と診断した。入院後も39.2℃におよぶ熱発を繰り返し、炎症所見も白血球数12600/mm³、CRP 24.5 mg/dl と増悪したため絶食とし中心静脈栄養管理を行った。抗生物質で肺炎を鎮静化させた後、同年12月3日に手術を施行した。

手術所見：右後側方切開、第5肋骨床で開胸

した。上葉は過膨張しているが、中下葉は肝臓様に萎縮し胸壁と強固に癒着していた。食道憩室は周囲に炎症が無く、容易に剥離できた。食道憩室・瘻管切除術を施行した (Fig. 5)。

組織学的所見：重層扁平上皮、食道腺および平滑筋層など正常な食道の構造が認められたが、気管支構造あるいはその移行像は認められなかった (Fig. 6)。

術後は順調に経過し、炎症所見も CRP 0.2 mg/dl と完全に消滅した。また右肺の再膨張も

Fig. 7 Chest X-ray film one month after surgery shows re-expansion of the right lower lobe.

良好で、術後1カ月の胸部X線写真で右下肺野の含気の増加が認められた (Fig. 7)。現在術後13カ月になるが、肺炎の再発はない。

症例2：58歳女性。

主訴は咳と痰である。幼少時から水を飲むとむせていた。57歳から肺炎を繰り返すようになった。近医で抗生物質や抗結核薬を投与されたが効果がないため、当科に入院した。胸部X線写真で右内側中下肺野に網状影を認めた。上部消化管造影および気管支鏡により右 B⁶c に交通する Braimbridge I 型の食道気管支瘻を確認し、食道憩室・瘻管切除および右下葉切除術を施行した。

症例3：49歳男性。

主訴は発熱、血痰である。幼少時より水を飲むとむせていた。6歳時に胸膜下膿瘍、23歳時に難治性肺結核と診断され、右中葉切除および右 S⁶ 部分切除術を施行された既往があるが、切除肺の結核菌は陰性であった。47歳から再び肺炎を繰り返し、血痰を認めたため来院した。胸部X線写真で右下肺野に無気肺と網状影を認め、

上部消化管造影および気管支鏡では右 B⁶c に交通する Braimbridge I 型の食道気管支瘻が確認された。食道憩室・瘻管切除術および右残存肺摘除術を施行し、以降肺炎の再発は認められていない。

考 察

成人に発症する先天性食道気管支瘻は臨床像が明らかになるにつれ非常にまれな疾患ではなくなってきた。食道憩室を伴った I 型について Braimbridge 自身は症例を呈示していないが¹⁾、I 型は本邦では1993年までに48例が報告されている^{4,10)}。われわれも過去に報告した6例³⁾を加えると合計9例の成人の先天性食道気管支瘻を経験しており、内訳は Braimbridge I 型4例、II型2例、III型3例で、比較的まれとされる I 型が多かった。

従来、先天性食道気管支瘻の診断基準として Brunner が提唱した3点、(1)瘻管周囲や食道周囲に炎症所見が無い、(2)瘻管にリンパ節の癒着が無い、(3)組織学的に瘻管に正常な食道粘膜と粘膜筋板が認められる、が用いられてきた¹⁾。国内では唐沢らが「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ていたことがある。思春期以降でも前記の症状が繰り返される」と「Braimbridge IV型に属するもの」の2項目を診断基準として追加した²⁾。しかし幼少時の症状を欠き50歳以上で初発した報告例も多く^{4,7,9,10)}、唐沢基準の前者は診断基準として必要条件ではないと考えられる。後者についても町田ら³⁾、山本ら⁸⁾が主張するように、Braimbridge IV型は先天性の要件だが発生理由を異にする肺分画症であるため同一に扱うべきではない。以上より Brunner の診断基準だけで先天性食道気管支瘻と診断してよいと考えられる。誤嚥性肺炎を繰り返す患者では、たとえ既往歴のない高齢者であっても本症を鑑別診断として挙げ、積極的に食道造影を施行してもよいだろう^{1,3,4)}。

当科の3例の臨床症状を比較すると出現時期が症例1で60歳、症例2で57歳であったのに対し症例3では23歳と若年であった点や、症例2、

3は幼少児にむせる症状があったが、症例1には見られなかった点がそれぞれ異なっている。しかし肺炎が繰り返された点、術中所見で瘻管周囲の炎症所見が全く認められなかった点、切除した瘻管に正常な食道組織が存在していた点とは一致した。臨床像、術中所見、組織学的所見とも過去の報告例にいずれも酷似していることから、3例とも先天性と判断した。なお症例1の72歳はわれわれが調べ得た限りでは最高年齢である。

本邦での Braimbridge I型に対する手術について自験例を含めた51例でまとめると、①：食道憩室・瘻管切除術のみ25例(49%)、②：①と肺区域合併切除術を施行したもの13例(26%)、③：①と肺葉合併切除術を施行したもの11例(21%)、④：①と肺全摘術(completion pneumonectomy)を施行したもの1例(2%)、および⑤：瘻管結紮術のみ1例(2%)であった^{3,10)}。Braimbridgeは、食道気管支瘻に対する最も効果的な治療は瘻管の切離・閉鎖と罹患肺の切除であると述べているが¹⁾、肺合併切除術は約半数で施行されただけで、最近は減少傾向にある¹⁰⁾。理由として症例3で示唆されるように本症の肺炎の根治には瘻管切除術が絶対必要ではあるが、術後の抗生物質投与で十分に肺炎を鎮静化できることが挙げられる。肺切除術は気管支拡張症や肺化膿症などの肺の不可逆的変化をとともなう場合には必要とされている^{2,4)}。当科でも過去の症例2, 3では肺病変を不可逆的と判断して肺合併切除術を施行した。しかし肝臓化した肺が再膨張し肺炎の再発も認められなかった症例1を考慮すると、症例2, 3においても肺温存を検討する余地があったと思われる。肺切除術の要否は、抗生物質投与だけでなく絶食させても肺炎が遷延するか否かで検討してはどうだろうか。肺温存の術式は肺機能を温存するだけでなく⁶⁾、膿胸、気管支断端瘻などの術後合併症^{2,5)}を回避することになる。特

に高齢者では低侵襲な肺温存の術式を考慮するべきであろう。以上より手術は食道憩室・瘻管切除術を第一選択とし、一次的な肺合併切除術の要否は絶食などの後に慎重に検討するべきだと考えられた。

結 語

食道憩室を伴う先天性食道気管支瘻の3例を、特に外科治療について文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第10回日本呼吸器外科学会総会(1993年6月、千葉)において発表した。

文 献

- 1) Braimbridge M V, Keith H I: Oesophago-bronchial fistula in the adult: Thorax **20**: 226-233, 1965.
- 2) 唐沢和夫, 沢田勤也, 赤嶺安貞, 他: 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.
- 3) 町田武久, 小野 勝, 古城雄二, 他: 成人の食道気管支瘻. 日胸疾会誌 **11**: 473-480, 1973.
- 4) 矢島謙志, 土井 修, 鍋島秀雄, 他: 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の1治験例. 日胸外会誌 **28**: 1876-1883, 1980.
- 5) 倉重眞澄, 草地信也, 加藤 治, 他: 成人の先天性食道気管支瘻の1手術例一本邦報告例の文献的考察一. 日胸外会誌 **33**: 922-927, 1985.
- 6) 西村 寛, 磯辺 真, 岩田定幸, 他: 成人における先天性食道気管支瘻の4治験例. 日胸外会誌 **35**: 411-415, 1987.
- 7) 重里政信, 西村 治, 櫻井武雄, 他: 膿胸を併発した成人の先天性食道気管支瘻の1治験例. 日胸外会誌 **35**: 2184-2188, 1987.
- 8) 山本英夫, 中川 健, 松原敏樹, 他: 食道憩室に連続した先天性食道気管支瘻の1治験例. 日胸外会誌 **38**: 318-323, 1990.
- 9) 鈴木 実, 斎藤博明, 山川久美, 他: 食道憩室を伴った成人の先天性食道気管支瘻の1手術例. 日胸外会誌 **39**: 1782-1785, 1991.
- 10) 島田友幸, 阿保七三郎, 北村道彦, 他: 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例一本邦例47例の検討一. 日胸外会誌 **40**: 2100-2106, 1992.
- 11) Brunner A: Ösophago-bronchiale Fisteln: Münch Med Wochr **103**: 2181-2184. 1961.

**Congenital esophagobronchial fistula with esophageal diverticulum
in the adult ; report of three cases**

*Toshiro Ohbuchi, Kanae Fukushima, Yusuke Mitoma, Yuji Shiraishi, Yuzo Sagara
Hikotaro Komatsu, Toru Katayama, Akira Hebisawa**

Department of Surgery, and* Pathology Tokyo National Chest Hospital, Tokyo, JAPAN

Three patients, a 49-year-old male, a 58-year-old female, and a 72-year-old, had had intermittent cough and fever for one to 12 years. In their infancy, two of them had had paroxysmal coughing after drinking water. Barium esophagograms revealed that a fistula with an esophageal diverticulum was connected with the right bronchus. At surgery all three fistulas were considered to be congenital, because they had no adhesions or inflammatory features, and exposure was easy. Pathological examination showed that the fistulas and the diverticulum had normal esophageal muscular and mucosal layers without any inflammatory changes. In the former two cases, the fistulectomies and diverticulectomies with the resection of corresponding pulmonary lobes were carried out. The third patient underwent only the fistulectomy and diverticulectomy with no recurrence of aspiration pneumonia.

In conclusion, the fistulectomy and diverticulectomy without any pulmonary resection is recommended as a less invasive surgical treatment.