症 例

食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻の 1 治験例

東京女子医科大学第 2 病院外科

大 谷 洋 一	飯 田 富 雄	菊 池 友 允
小 川 健 治	芳 賀 駿 介	湖 山 信 篤
熊 沢 健 一	中 田 一 也	服 部 俊 弘
梶 原 哲 郎	榑 原 宣	

CONGENITAL OESOPHAGO-BRONCHIAL FISTULA WITH
DIVERTICULUM IN THE ADULT

Yoichi OHTANI, Tomio IIDA, Tomomitsu KIKUCHI, Kenji OGAWA, Shunsuke HAGA,
Nobuatsu KOYAMA, Kenichi KUMAZAWA, Kazuya NAKATA, Toshihiro HATTORI,
Tetsuro KAJIWARA and Noburu SAKAKIBARA

Devision of Surgery, Tokyo Women's Medical College Daini-Byoin Hospital

最近、われわれは成人で食道憩室を伴う先天性食道気管支瘻の 1 例を経験し、これを外科的に治癒せしめたので、若干の文献的考察を加えて報告したい。

症例は 32 歳、女性、7 年前から嚥下時のつかえ感あり、5 年前より咳・発熱などの症状が出現。食道 X 線透視にて、Im 部の憩室を認め、ここから気管支 (B_{10a}) に造影剤の流入があり、食道気管支瘻と診断。外科治療の適応と判断し、右開胸で、憩室・瘻管切除を行った。瘻管周囲に炎症性癒着なく、また腫大したリンパ節もみられなかった。瘻管の大きさは 3.0×1.0cm であった。病理組織所見では、正常食道粘膜を有し、筋層も認められた。また重層扁平上皮から気管支上皮への移行が認められる。これらの所見より、先天性食道気管支瘻と診断した。

食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻は、Brambridge 分類の I 型に属するものと思われる。この I 型についての症例報告はきわめてまれで、毛利の報告以来わずか 7 例の報告をみるにすぎず、自験例は第 8 例目である。

本疾患の治療原則は、憩室・瘻管切除であり、肺合併切除に関しては充分慎重であるべきである。

1. はじめに

成人における先天性気管支瘻はきわめてまれで、そのなかでも食道憩室に瘻管を形成するものは、本邦で毛利の報告¹⁾以来わずか 7 例の報告³⁾⁵⁾⁷⁾⁸⁾⁹⁾¹⁰⁾をみるにすぎない。最近、われわれは成人で食道憩室を伴う先天性食道気管支瘻を経験し、これを外科的に治癒せしめたので、若干の文献的考察を加えて報告したい。

2. 症 例

患者：32 歳。既婚女性。無職。

家族歴：義姉が 4 年前、肺結核で 3 カ月間入院治療を受けている。

既往歴：20 年前、虫垂切除術をうける。

現病歴：7 年前から嚥下時のつかえ感あり。5 年前から咳・発熱などの症状が頻回に出現し、近医で気管支炎といわれていた。半年前より、水を飲むとむせやすく、右側臥位で胸部重圧や咳が増悪した。そのため水は少しずつしかのめ飲めなかった。しかし高熱や咳嗽が持続したことはない。

上記症状とは別に、半年前より、嘔気・嘔吐を伴った食後の右季肋部痛があった。2, 3カ月前より疼痛発作が頻回になってきた。

昭和56年4月、右季肋部痛を主訴として当院を受診した。

入院時現症：身長154cm、体重48kg、脈拍68/分で整、緊張良好。血圧110/74mmHg。眼球結膜には黄疸なく、眼瞼結膜に貧血なし。胸部打聴診上異常所見なし。腹部、右季肋部に軽度圧痛を認めるが、抵抗や腫瘤などは触知しない。

検査成績：血液一般検査、電解質バランス、肝機能、肺機能などすべて正常範囲であった。ツ反陽性であったが、喀痰検査は塗抹および培養で、結核菌は陰性であった。

胸部正面単純X線像(図1)では、右下肺野に慢性気管支炎のような陰影を認めるが、ほかに明らかな結核病巣、悪性像などの異常所見はない。

腹部エコーで、胆のう内に直径1cmの結石が2～3個認められるが、胆のう腫大はなく、壁の肥厚もみられない。胆管の拡張はなく、肝・脾には特に異常所見なし、胆石症と診断した。

食道X線透視(図2)で、Im部の右側壁に憩室を認め、ここから気管支に造影剤の流入があり、食道気管支瘻と診断した。そのほか上部消化管に異常所見はみられなかった。

食道内視鏡検査(図3)で、門歯列より32cmの右側

図2 食道X線透視

図3 食道内視鏡(憩室および瘻管開口部)

図1 胸部正面単純X線像

壁に憩室を認め、底部に円形の気管支瘻の開口部がみられる。その周囲粘膜に発赤・腫脹などの炎症所見は認められない。

気管支鏡検査(図4)で、右B₁₀a(後肺底枝)内に瘻管開口部を認める。周囲粘膜に強い炎症所見および悪性所見はみられない。

気管支造影(図5)で、B₁₀aと食道との交通を認め、B₉とB₁₀が軽度拡張している。

以上の検査結果より、食道気管支瘻および胆石症と診断した。主訴は右季肋部痛であり、その原因は胆石

図 4 気管支鏡（左上方が瘻管開口部）

図 5 気管支造影

症であることがわかった。この胆石症は内科的に経過を追う方針とした。食道気管支瘻に対しては、外科的治療の適応と診断した。

手術所見：昭和56年5月8日、右側臥位とし、全身麻酔下に右第5肋間で開胸した。胸水の貯留はなかったが、肺葉全体にわたって胸壁胸膜との間に線維性癒着が認められた。これを肺門方向に剝離してゆくと、肺下葉と食道との間に瘻管を認めた。瘻管周囲に炎症

図 6 瘻管の病理組織像

性癒着なく、また腫大したリンパ節もみられなかった。瘻管の大きさは3.0×1.0cmであった。瘻管の食道側は憩室を含めて切離し、切離端は2層に縫合。気管支側も切離端を閉鎖した。

術後経過：良好で、術後21病日で退院した。

病理組織学的所見(図6)：瘻管は正常食道粘膜を有し、筋層も認められる。また重層扁平上皮から気管支支上への移行が認められる。慢性炎症に伴う線維化などはみられなかった。

3. 考 察

成人における食道気管支瘻の多くは、食道癌や肺癌などの悪性腫瘍を原因とするものであり、良性のものはきわめて少いとされている。木村¹⁾の集計では、成人の良性食道気管支瘻の原因として先天性のものが152例中61例と最も多く40%を占め、ついで結核など炎症性のものが40例、26%、憩室によるものが35例、23%となっている。

しかし成人の食道気管支瘻について、先天性か後天性かを判別するのははかならずしも容易でない。

Brunner²⁾は先天性成因であるとす規準として、つぎの3項目をあげている。

- 1) 瘻管および食道周囲に炎症性所見がないこと。
- 2) 瘻管にリンパ節癒着がみられないこと。
- 3) 組織学的に瘻管は正常食道粘膜を所有し、かつ粘膜筋板を有していること。

また唐沢ら³⁾も先天性であることの判定基準として、表1のような提案をしている。これらのうち3) 4) は先天性であることの必要十分条件であるとし、これらを欠く症例では1), 2)の総合判断によらなければならないとしている。

われわれの症例は、発症が25歳頃であり唐沢らの判

表 1 食道気管支瘻が先天性であることの判定基準
(唐沢 1970)

- 1) 幼少時より、水分摂取の際激しい咳嗽発作があり、肺炎をしばしば繰返したことがある。思春期以後でも前記の症状が繰返される。
- 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、瘻管の露出はきわめて容易である。
- 3) 病理組織学的には、瘻管は食道固有の粘膜上皮を有し、筋層を保育している。瘻管そのものは炎症所見がなく、あるいはあってもきわめて軽度で、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。

定基準 1) と合致しない。しかし文献上このような症例はまれでなく、入沢ら⁴⁾は約 30% の症例に症状発現の遅延をみると述べている。手術時に炎症所見のみられないこと、病理組織所見などの条件は Brunner²⁾や唐沢ら³⁾の基準を満たしていると考えられる。これらの所見から、われわれの症例は先天性食道気管支瘻と考えてもよいものと思われる。

成人の先天性食道気管支瘻は Braimbridge¹¹⁾によって 4 型に分類されている(図 7)。われわれの症例は食道憩室を伴う食道気管支瘻ということで、この分類の I 型に属するものと思われる。この I 型についての症例報告はきわめてまれで、矢島ら⁵⁾の集計でも 59 例の成人先天性食道気管支瘻のうち I 型は 5 例、8.5% にすぎない。

われわれの調べた範囲で、自験例は Braimbridge のいう I 型の本邦報告、第 8 例目である(表 2)。以下これらの症例につき検討してみた。

年齢は、32 歳から 62 歳まで幅広くみられており、平均年齢は 47.9 歳である。

I

wide necked diverticulum
with inflammatory fistula at tip

II

simple fistula

III

fistula with cyst

IV

fistula with sequestered
segment

図 7 先天性食道気管支瘻の分類 (Braimbridge 1965)

性別は、男女比が 4:4 で同率となっている。

罹病期間についてみると、幼少時からの発症をみないものが 3 例ある。先天性食道気管支瘻の症状が遅延して発現する理由として、食道皺壁が瘻孔を被うとする Nagus¹²⁾の説や、瘻管閉鎖していた膜が破裂する¹³⁾など多くの説があるが、一定の見解はえられていない。自験例では、どのような原因で症状発現が遅延したのか判定不能であった。

食道との交通部位は、すべて右側の肺または気管支である。下葉との交通がほとんどであり、とくに S₆、

表 2 食道憩室を伴う成人の先天性食道気管支瘻 (本邦報告例)

症例 No.	報告者	年齢	性	罹病期間	交通部位	治療法
1	毛利 ⁶⁾ (1967)	48	男	不明	右主気管支	憩室・瘻管切除
2	唐沢 ³⁾ (1970)	51	女	18カ月	右 S ₆	右 S ₆ 、憩室・瘻管切除
3	小玉 ⁷⁾ (1973)	62	男	不明	右 S ₆	瘻管切除
4	古賀 ⁸⁾ (1974)	64	女	年少時から	右下葉気管支	右中下葉切除
5	倉重 ⁹⁾ (1979)	39	男	1年半	右 B ₆	右 S ₆ 、憩室・瘻管切除
6	矢島 ⁵⁾ (1980)	51	女	小児期から	右 B ₆	憩室・瘻管切除
7	久米川 ¹⁰⁾ (1981)	36	男	幼少時から	右 S ₆	右下葉、憩室・瘻管切除
8	自験例 (1981)	32	女	7年	右 B ₁₀	憩室・瘻管切除

B₆との交通が多い、なぜそれらの部位に発生が集中するのは明らかでない。

治療について、瘻管の外科的な閉鎖が最も良い方法であることは文献的にも一致した考え方となっている。しかし、瘻管切除と憩室切除は当然おこなわれるべきであるが、それに肺切除を加えるべきかどうかに関しては、いまだに異論の多いところである。Brambridge¹¹⁾は二次的な気管支拡張性変化があるとき肺切除の付加をすすめている。矢島ら⁵⁾は、瘻管切除のみで十分目的を果たう可能性が高く、肺合併切除に関しては充分慎重であるべきであると述べている。われわれも、本疾患の治療原則は瘻管切除であり、むやみに肺切除をおこなうべきでないと考える。

4. おわりに

われわれは成人の食道憩室を伴う先天性食道気管支瘻 (Brambridge 分類の I 型) の 1 例を経験し、外科的に治癒せしめたので、若干の文献的考察を加えて報告した。

(本論文の要旨は1981年12月12日、第703回外科集談会において発表した。)

文 献

- 1) 木村莊一, 熊谷 直, 佐藤博俊 他: 成人における非悪性食道気管支瘻の外科的治療。抗酸菌病研究雑誌, 28, 3—4: 61—68, 1976.
- 2) Brunner, A.: Oesophago-bronchiale Fisteln, Münch. Med. Wschr., 103: 2181—2184, 1961.
- 3) 唐沢和夫, 沢田勤也, 赤嶺安貞 他: 成人の先天性食道気道瘻について。日胸外会誌, 18: 51—60,

1970.

- 4) 入沢彰仁, 吉村博邦, 守屋斗人 他: 成人における先天性食道気管支瘻の一治験例。日胸, 38: 467—472, 1979.
- 5) 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一治験例。日胸外会誌, 28: 124—131, 1980.
- 6) 毛利喜久男, 石上浩一, 山本國太郎 他: 食道気管支瘻を合併した先天性中部食道憩室の手術治験例。日胸外会誌, 15: 1269, 1967.
- 7) 小玉正智, 原 智次, 久保雄治 他: 憩室を伴う食道気管支瘻の 1 例。外科, 35: 673—676, 1973.
- 8) 古賀昭夫, 坪井慶孝: 先天性と思われる成人食道気管支瘻の 1 例。外科診療, 16: 934—939, 1974.
- 9) 倉重真澄, 加藤 治, 鈴木秀明 他: 成人における先天性食道気管支瘻の 1 例。日消外会誌, 72: 191, 1979.
- 10) 久米川啓, 羽生富士夫, 中村光司 他: 成人の先天性食道気管支瘻の 1 治験例。日外会誌, 82: 418, 1981.
- 11) Brambridge, M.V. and KEITH, H.I.: Oesophago-bronchial fistula in the adult. Thorax, 20: 226—233, 1965.
- 12) Nagus, V.E.: Oesophagus from a middle-aged man, showing a congenital opening into the trachea. Proc. Roy. Soc. Med., 22: 527, 1929.
- 13) Jackson, C. and Coates, G.M.: The nose, Throat and Ear and their diseases. Saunders, Philadelphia: 1124, 1929.