

成人の食道気管支瘻の2例

川崎医科大学附属川崎病院 内科

塚本 真言, 阿部 勝海, 石賀 光明

篠原 昭博, 坂本 武司

同 外科

吉岡 一由

長井 外科

長井 禹夫

川崎医科大学附属川崎病院 放射線科

平 松 収

同 病理

佐藤 博道, 伊藤 慈秀

(昭和57年2月16日受付)

Esophagobronchial Fistula of the Adult

— Report of 2 Cases and Review of
Recent Japanese Cases —

Makoto Tsukamoto, Katsumi Abe
Mitsuaki Ishiga, Akihiro Shinohara

Takeshi Sakamoto

Department of Medicine, Kawasaki Hospital
Kawasaki Medical School

Kazuyoshi Yoshioka

Department of Surgery, Kawasaki Hospital
Kawasaki Medical School

Nobuo Nagai

Nagai Surgical Hospital

Osamu Hiramatsu*, Hiromichi Sato**
and Jishu Ito**

Departments of Radiology* and Pathology**, Kawasaki Hospital
Kawasaki Medical School

(Accepted on February 16, 1982)

成人における非腫瘍性食道気管支瘻の2例を経験したので、症例報告と文献的考察を行なった。第1例は51歳女性で、約10年前より咳嗽、喀痰、発熱をくり返し、約3年前よりこれら愁訴が増強した。食道造影により食道気管支瘻と診断され、瘻切除術および右肺下葉切除術を施行後、病理組織学的に先天性食道気道瘻と診断された。術後40日目で軽快退院した。

第2例は46歳男性で、作業中転落し、下頸骨骨折、頭蓋骨骨折および胸部打撲をきたした。これら外傷はいったん軽快したが、時々嚥下性肺炎様症状を呈し再入院した。食道・

気管支造影により外傷性食道気管支瘻が最も疑われた。栄養胃瘻造設が行なわれたが、術後第2週（受傷後7カ月）目に誤嚥のため死亡したため、瘻切除術は施行されなかった。

We reported 2 adult cases of non-neoplastic esophagobronchial fistula and made a review of the recent Japanese cases.

Case 1: A 51-year-old woman suffered from repeated episodes of productive cough and fever for 10 years, which occurred frequently for the last 3 years. An esophagobronchial fistula was disclosed on esophagography, and fistulectomy combined with lobectomy of the lower lobe of the right lung was performed. Congenital nature of the fistula was confirmed by pathological study.

Case 2: A 46-year-old man fell from a high place while at work and had fracture of the mandible and skull as well as contusion of the chest wall. He virtually recovered from these traumas without persisting complications, but began to present at times symptoms suggestive of aspiration pneumonia. Esophagography combined with simultaneous bronchography demonstrated an esophagobronchial fistula which appeared most likely to be of a traumatic etiology. He died from suffocation on the 2nd week from nutrition gastrostomy (7th month after the trauma), and for this reason no fistulectomy was performed.

はじめに

成人の食道気道瘻は比較的まれな疾患とされている。その成因は、先天性のものと後天性のものに分けられるが、成人の食道気道瘻の多くは後天性で、その中では悪性腫瘍由来のものが約80%を占め、残る20%の良性疾患によるものの中では80~90%を憩室と炎症が占めている。

我々は先天性のもの1例と、外傷性と思われるもの1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1：51歳、女性、保母。

主訴：湿性咳嗽、発熱。

既往歴：メニエル氏病（41歳時）。10年前より気管支炎または肺炎として頻回受療。

家族歴：父と兄が肺結核。

現病歴：入院2カ月前、上腹部膨満感が出現したため、本院放射線科で胃X線検査を受け、食道気管支瘻と診断された。

入院時所見および検査成績：身長150.4cm,

体重48.5kg、栄養状態中等度良好、血圧120/60mmHg、脈拍86/分、整、体温37.8°C、チアノーゼ（-）、バチ状指（-）、右肺に聴診上呼吸音増強を認めるほかは、理学的所見、一般検査所見に特に異常は認められなかった。

食道造影所見：気管分岐部より3cm下で第7肋骨の水準において、食道の右壁と右肺下葉上枝（B₆）とが交通していた（Fig. 1）。

気管支鏡所見：右主気管支は全体的に浮腫状で、右肺下葉の各区域気管支にも軽度の腫脹を認めたが、瘻孔は確認できなかった。

手術所見：右第6肋骨床で開胸され、縦隔部胸膜の肥厚と線維性瘻着が強く認められた。右肺下葉は虚脱状で、B₆気管支と食道の気管分岐部よりやや下方部位との間に瘻形成が認められ、瘻管周囲には炎症所見や瘻着はみられなかった。瘻切除術および右肺下葉切除術が行なわれ、術後食道造影にて瘻の消失が確認された（Fig. 2）。

病理組織学的所見：瘻管の内面は軽度～中等度に肥厚した重層扁平上皮により被われており、上皮下には固有筋層が認められたが、筋層の発達の程度は場所により様々であった。また

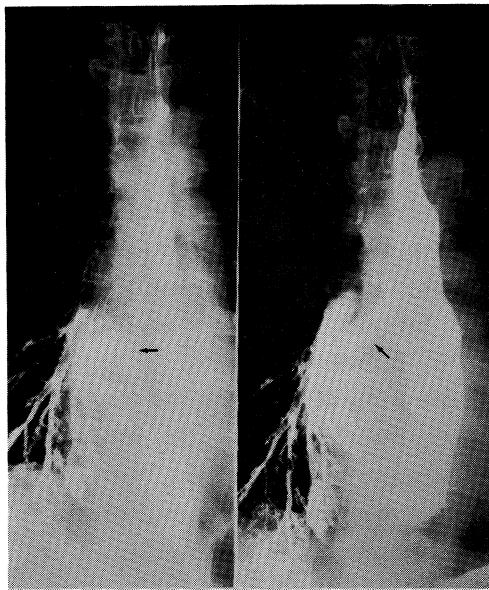


Fig. 1. Esophagogram with simultaneous bronchogram revealing a fistulous tract (arrows) communicating between the right B₆ bronchus and the esophagus. (Case 1).

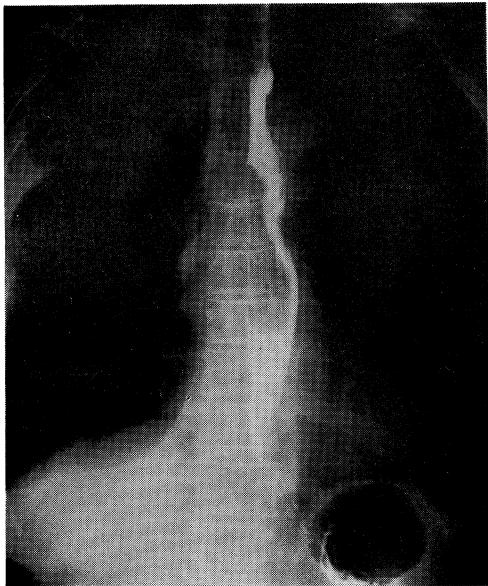


Fig. 2. Post-operative esophagogram indicating disappearance of the fistula (Case 1).

上皮下には軽度のリンパ球浸潤および軽度の線維化がみられた(Fig. 3)。瘻と気管支との移行部では、瘻粘膜は重層扁平上皮から纖毛上皮へ



Fig. 3. The fistula being lined by a stratified squamous epithelium (E) over the luminal surface and surrounded by a smooth muscle layer (M). Note only a minimal chronic inflammatory infiltration in the subepithelial tissues (Case 1). (H-E stain, $\times 52$)

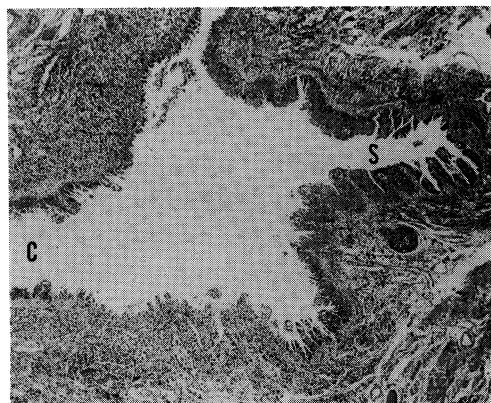


Fig. 4. Transitional portion of the fistula to the bronchus being lined by a stratified squamous epithelium (S) in one side and by a ciliated columnar epithelium (C) in the other side (Case 1). (H-E, $\times 52$)

と連続して移行していた(Fig. 4)。

また肺実質内には比較的限局性ではあるが、強い慢性炎症像が認められた。

術後経過: 順調で、術後6週目に軽快退院した。

症例2: 46歳、男性、会社員。

主訴: 咳嗽、喀痰、胸部不快感。

既往歴: 肺結核(36歳時)、結核性胸膜炎(44

歳時). 肺炎および気管支炎の既往はない。

家族歴：特記すべきものなし。

現病歴：会社で作業中3メートルの高さより落下し、下頸骨と頭部を受傷した。直ちに本院整形外科を受診し、下頸骨骨折、頭蓋骨骨折、胸部打撲症および左股関節部打撲症と診断され、気管切開および観血的治療を受けた。入院後9週目に肺炎の合併を来たしたが、1週間の化学療法等で順調に軽快した。5カ月の入院により、これら外傷は軽快して、一旦退院したが、その後食事を摂取するとむせるようになり、また血痰、黒色便が継続するため、退院1カ月後再び本院内科に入院した。

入院時所見および検査成績：身長173.0cm、体重50.0kg、栄養状態普通、血圧110/70mmHg、脈拍108/分、体温37.0°C、チアノーゼ(−)、右下肺野に聴診上湿性ラ音を認めるほかは、理学的所見、一般検査所見に特に異常は認められなかった。

食道・気管支造影所見：気管は右方に変位し、その分岐部より2cm下方において、右主気管

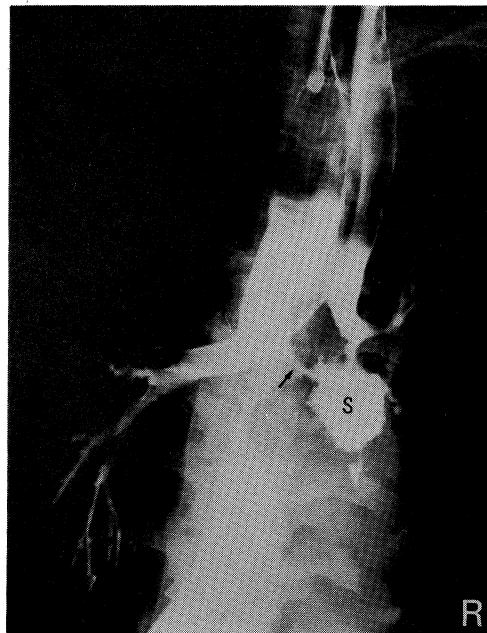


Fig. 5. Esophagogram with simultaneous bronchogram revealing fistulous tracts (arrows) and sinus (S) (Case 2).

支の上葉枝入口部の高さでsinusが形成され、これを通じて右主気管支と中部食道が交通していた(Fig. 5)。

経過：本症例の食道気道瘻は外科的に処置するよりほかに方法はなかったが、それに先立ち栄養瘻造設が必要であったため、空腸有茎移植による胃瘻造設術を施行した。しかし術後15日目に、誤嚥による急性肺炎および気道閉塞のため死亡した。

考 察

食道気道瘻の成因には種々の疾患が考えられているが、その発生機序により、一般に先天性と後天性に大別されている(Table 1)。しか

Table 1. Classification of esophagotracheo bronchial fistulas
—Coleman & Bunch, 1950⁸⁾—

- I. Congenital
- II. Acquired
 - A. Malignant
 - B. Non-malignant
 - 1. Traumatic
 - a) Foreign body
 - b) Instrumentation
 - c) Wounds of thorax
 - d) Chemical (ingestion caustics)
 - 2. Esophageal diverticulum
 - 3. Infection
 - a) Tuberculosis
 - b) Syphilis (gumma or aneurysm)
 - c) Fungus
 - d) Nonspecific
 - 4. Undetermined

し、成人における食道気道瘻が先天性か後天性かの判定は実際上困難である。

先天性食道気道瘻の診断は、しばしば1961年Brunner¹⁾によって提示された判定基準によって行なわれている。すなわち、①手術時、瘻管周囲および食道周囲に炎症所見のないこと、②瘻管にリンパ節癒着のないこと、③組織学的には、瘻管は正常食道粘膜を有し、粘膜筋板を所有していること、を先天性食道気道瘻の診断根拠としている。

Braimbridge & Keith²⁾は、先天性食道気管支瘻を4型に分類し、I型は底の広い食道憩室とそれに連続する炎症性瘻管のあるもの、II型は単純な瘻管のみのもの、III型は囊胞を伴っているもの、またIV型は分画症肺との間に瘻管を形成するもの、としている。

一方、唐沢ら³⁾は臨床的所見にも注目し、自験例2例と内外の文献的考察にもとづいて、新生児以外の食道気道瘻が先天性であることの判定基準として、以下の4項目を挙げている。すなわち、①幼少時より水分摂取に際して咳嗽発作があり、肺炎の合併がしばしばみられること、②手術時、瘻管周囲にリンパ節癒着あるいは炎症所見がみられず、瘻管露出がきわめて容易であること、③病理組織学的には瘻管は食道固有の粘膜を所有し、固有筋層を保有している。瘻管そのものには炎症所見はなく、あってもきわめて軽度であり、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こと、④Braimbridge & KeithのIV型に相当するもの、である。

我々の症例1の場合は、幼少時からではないが10年間にわたる頻回の気管支炎または肺炎の既往があり、また手術所見上も炎症や癒着は認められなかった。さらに組織学的検索により瘻管は食道粘膜とほぼ同様な重層扁平上皮で被われ、これが気管(B₆)のところで連続的に織毛上皮へと移行しており、また瘻管固有の筋層も認められ、他方、炎症所見はきわめて軽度であった。これらの所見は、先天性食道気道瘻の上記の判定基準すべてに適合することから、本例は先天性食道気道瘻と診断した。

一方、後天性食道気道瘻の原因としては食道癌が最も多いが、⁴⁾肺癌⁵⁾および甲状腺癌⁶⁾転移によるものも報告されている。

後天性食道気道瘻のうち非腫瘍性のものについて、Hughes & Fox⁷⁾およびColeman & Bunch⁸⁾がそれぞれ成因別に分類している(Table 1, 2)。

外傷性食道瘻の成因に関しては、一般に異物、器械的損傷、胸部外傷、腐蝕剤嚥下、手

術操作などが挙げられているが、Coleman & Bunch⁸⁾の集計によると、食道の非穿通性損傷によるものが最も多く、ついで食道拡張ないしは狭窄によるもの、異物によるものの順になっている(Table 2)。しかしながら、これら単独

Table 2. Etiology of thirty-one reported cases of traumatic esophagorespiratory fistula.
—Coleman, 1957—

Nonpenetrating wound	9
Dilatation, Stricture	5
Foreign body	4
Penetrating wound	3
Operative	3
Chemical	3
Incomplete data	4

の原因で瘻孔が形成されるることは少なく、多くは二次感染の合併が関連するといわれている⁴⁾。発生部位別には、気管あるいは気管支との間に食道瘻を形成することが比較的に多いとされている。⁴⁾

我々の症例2は、胸部打撲を含む多発性外傷後に発生していること、また先天性のものを疑わせる既往歴がないことから、病理組織学的な検索は行なわれていないが、外傷性、特に胸部外傷性の食道気管支瘻が最も疑われた。

本邦における成人の食道気道瘻に関しては、1961年から1970年までの104報告例について内山ら⁴⁾が既に考察している。したがって我々は今回、1971年から1979年までの成人の非腫瘍性食道気道瘻の報告例を検索したところ、記

Table 3. Frequency of non-neoplastic esophagobronchial fistulas in Japan during 1971-1979
—Tsukamoto, et al., 1982—

*Congenital	64 (56.1%)
*Acquired	37 (32.5%)
Traumatic	3 (8.1%)
Diverticular	26 (70.2%)
Infectious	8 (21.6%)
*Undetermined	13 (11.4%)
Total	114

Table 4. Sex and Age of non-neoplastic esophagobronchial fistulas in Japan

Age \ Sex	Male	Female	Total
—20	2	5	7
21—30	15	13	28
31—40	10	12	22
41—50	11	11	22
51—60	6	18	24
61—70	4	3	7
71—80	1	3	4
Total	49	65	114

載が比較的明確な症例は 114 例であった。この内訳は先天性 64 例 (56.1 %) に対し、後天性 37 例 (32.5 %)，不明その他 13 例 (11.4 %) であった (Table 3)。性別は男 49 例、女 65 例であり、最年長者は 75 歳であった (Table 4)。

Deaton & Coggesball⁹⁾ は、胸部外傷に起因した食道気道瘻の 1 自験例と文献上の 8 例の考察から、それらの原因として steering wheel injury を重視している。我々が検討した 1971 年以後の本邦症例のうち、胸部外傷が起因した 3 例中 2 例は自動車ハンドル外傷によるものであった。

食道気道瘻の定型的な症状としては、Helmsworth & Pryles¹⁰⁾ は以下のように述べている。すなわち、(1) 体位変換時あるいは食物摂取時、特に流動物摂取時における咳嗽発作：痰に食物の混入がみられることが特徴であり、水を飲んだ後、肺内に水泡音が聞かれる、(2) 腹部膨満と恶心嘔吐：これは咳嗽発作や呼吸により空気が瘻孔を経て胃内に押し込まれることによる、(3) 再発性持続性肺炎：食物や胃液が瘻

管を通り肺に流入するために起こる、などである。

食道気道瘻の臨床診断法には、食道 X 線検査法あるいは食道内視鏡検査法による食道側から瘻孔を診断する方法と、気管支造影法あるいは気管支ファイバースコープによる気道側からの診断方法が挙げられる。食道 X 線検査法においては、瘻孔が比較的大きい場合にはその発見が容易であるが、瘻孔が小さい場合や瘻管の食道開口部より気道開口部が高位にある場合には、その造影が困難なことが多いといわれる。¹¹⁾ 食道鏡や食道ファイバースコープによる内視鏡検査法は、小さい瘻孔の証明には必ずしも有効ではないが、憩室炎の存在や瘻孔周囲の粘膜の炎症性変化の有無の術前検索には唯一の有効な手段であるといわれる¹¹⁾ ので、本症患者には是非とも試みるべき術前検査であろう。

治療法としては、食道と異常交通を示す気道部位やその成因によって異なるが、基本的な治療法である瘻切除術 (fistulectomy) 以外では、経口食物摂取の中止、安静および抗生物質による化学療法等の対症療法と、各成因に応じた原因療法をあわせ行なうべきであろう。

おわりに

成人における非腫瘍性食道気道瘻のうち、先天性の 1 例と外傷性が最も考えられた 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第 28 回日本消化器病学会中国四国地方会において報告した。

文 献

- 1) Brunner, A.: Oesophago-bronchiale Fisteln. Münch. med. Wschr., 103: 2181, 1961
- 2) Braimbridge, M. V. and Keith, H. I.: Oesophagobronchial fistula in the adult. Thorax 20: 226—233, 1965
- 3) 唐沢和男、沢田勤也、赤嶺安貞、三浦重人、福間誠吾、須知泰山、佐藤秩子：成人の先天性食道瘻について。日胸外会誌 18: 51—60, 1970
- 4) 内山八郎、加治佐隆、是枝誠一郎、高原篤弘、西瀬戸紀征、大山 満、末永豊邦、木原晃一、大塚直純、泊直十郎：成人における食道瘻。臨床と研究 48: 1694—1704, 1971
- 5) 三井清文、遠藤勝幸、蘇原泰則、堀原 一、仲田 祐：後天性食道気管支瘻。外科 40: 1141—1147, 1978

- 6) 浜田栄祐, 島居有人, 森田信行, 佐藤 功: 食道気管支瘻の治療. 胸部外科 8: 897—904, 1955
- 7) Hughes, F. A. and Fox, J. R.: Acquired nonmalignant esophagobronchial fistula. J. thoracic Surg. 27: 384—389, 1954
- 8) Coleman, F. P. and Bunch, G. H.: Acquired nonmalignant esophagobronchial fistula. J. thoracic Surg. 19: 542—556, 1950
- 9) Deaton, W. R. and Coggeshall, A. B.: Acquired tracheoesophageal fistula following compression injury to the chest. J. thoracic Surg. 44: 84—89, 1962
- 10) Helmsworth, J. A. and Pryles, C. V.: Congenital tracheoesophageal fistula without atresia. J. Pediat. 38: 610—617, 1951
- 11) 多田正大, 小林顯彦, 木本邦彦, 西山順三, 大川原康夫, 川井啓市: 悪性腫瘍に原因しない食道気道瘻の二症例. 京府医誌 82: 161—167, 1973