

## ●症 例

## 食道, 気管支, 頸部皮膚に穿孔し瘻孔をきたした 肺門 (縦隔) リンパ節結核の1例

岩切章太郎<sup>a</sup> 糸井 和美<sup>a</sup> 今村 直人<sup>a</sup>  
上松 浩子<sup>a</sup> 遠藤 和夫<sup>b</sup> 平林 正孝<sup>b</sup>

要旨：症例は32歳，男性。発熱，咳嗽にて近医受診し肺門，縦隔リンパ節腫大を指摘された。縦隔鏡下リンパ節生検を施行直後に黒褐色吐物を認め，肺門（縦隔）リンパ節結核の食道穿孔と診断し抗結核治療開始した。治療開始後2ヶ月半に両肺野に浸潤影が出現し，肺門（縦隔）リンパ節結核の気管支穿孔と診断した。5ヶ月に右頸部皮膚瘻が出現したが治療継続により5，10，19ヶ月に食道，皮膚，気管支瘻は各々閉鎖，23ヶ月に縦隔リンパ節の軽度腫大を残すのみとなり治療終了した。食道，気管支，頸部皮膚に穿孔した肺門（縦隔）リンパ節結核は非常にまれで，貴重な症例と考え報告する。

キーワード：肺門リンパ節結核，縦隔リンパ節結核，食道穿孔，気管支穿孔，頸部皮膚瘻

Hilar tuberculous lymphadenitis, Mediastinal tuberculous lymphadenitis,  
Esophageal perforation, Endobronchial perforation, Cervical cutaneous fistula

### 緒 言

成人発症の肺門（縦隔）リンパ節結核はまれな疾患であり，肺野に病変を認めない場合，悪性腫瘍との鑑別を要する。その主な合併症は，食道，気管支，大動脈などの近接臓器への穿孔とされる<sup>1)2)</sup>。今回我々は，肺門（縦隔）リンパ節結核に起因する食道穿孔，および抗結核治療中に気管支内穿孔による肺野への進展と，頸部皮膚瘻を合併したまれな症例を経験したので報告する。

### 症 例

症例：32歳，男性。  
主訴：発熱，咳嗽。  
家族歴：結核なし。  
既往歴：アトピー性皮膚炎。  
喫煙歴：20本/日×15年。  
飲酒歴：機会飲酒。  
職業歴：機器修理（東南アジアへ出張歴多数あり）。  
現病歴：2009年5月3日より38.0℃台の発熱，咳嗽



Fig. 1 The chest X-ray film on admission shows left hilar lymphadenopathy.

が出現，近医受診し抗菌薬を投与された。5月6～15日インドネシアに出張，帰国後も症状持続した。胸部X線写真，CTにて左肺門，縦隔リンパ節腫大を指摘され，5月18日兵庫県立尼崎病院紹介受診。臨床所見および画像からは，悪性リンパ腫，サルコイドーシス，肺門（縦隔）リンパ節結核等が鑑別診断として考えられたが，肺野病変および喀痰ともに認めないため，悪性疾患の除外および確定診断目的に縦隔鏡検査を施行予定で，6月1日入院となった。

連絡先：岩切 章太郎  
〒660-0828 兵庫県尼崎市東大物町 1-1-1

<sup>a</sup>兵庫県立尼崎病院呼吸器外科

<sup>b</sup>同 呼吸器内科

(E-mail: iwakiri@kuhp.kyoto-u.ac.jp)

(Received 29 Jun 2012/ Accepted 14 Nov 2012)

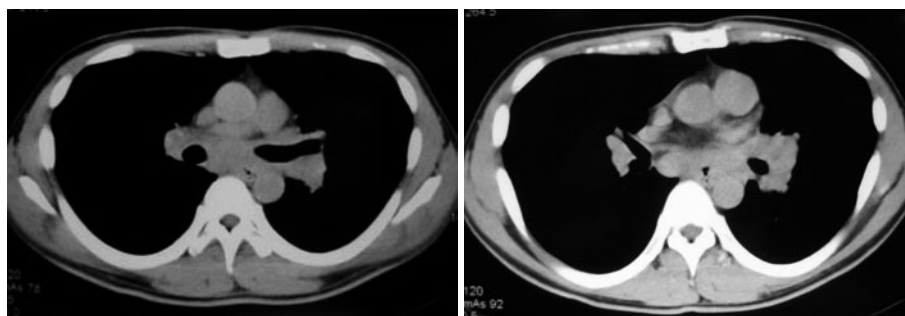


Fig. 2 The chest CT images on admission show mediastinal and hilar lymphadenopathy.



Fig. 3 The esophageal endoscopic finding just after mediastinoscopy shows deep ulceration with fistula.

入院時現症：身長 171 cm，体重 64.3 kg，体温 38.0℃，脈拍 115 回/min（整），血圧 132/84 mmHg。鎖骨上窩リンパ節腫脹なし。ほかに特記すべき所見なし。

入院時検査所見：白血球 8,000/μl，好中球 81.8%，Hb 12.4 g/dl，CRP 7.23 mg/dl であった。ACE は正常値，IL-2 レセプターは 825 U/ml と軽度高値であった。ツベルクリン反応は 26×22/38×32 mm（硬結あり，二重発赤なし）で，QuantiFERON-TB2G® は陽性，抗 HIV 抗体は陰性であった。喀痰検査は喀痰が出ず施行不可であった。

入院時画像所見（Fig. 1, 2）：胸部 X 線写真，CT（単純）にて肺野に異常はみられなかったが，肺門，縦隔リンパ節腫大を認めた。

臨床経過：入院翌日（6月2日），全身麻酔下に縦隔鏡を施行し，リンパ節 #7，#4R の生検により縦隔リンパ節結核と診断した。術直後ルーチン採血で Hb 5.5 g/dl と貧血が進行し，黒褐色吐物もみられたため，消化管出血を疑い上部消化管内視鏡検査を施行した。気管分岐部背側付近の食道中部に辺縁不整で周囲白苔を伴う潰瘍性病変がみられ（Fig. 3），縦隔リンパ節結核の食道内への穿破による消化管出血と診断した。直後より絶飲食

および経鼻胃管を挿入し，6月3日イソニアジド（isoniazid：INH），リファンピシン（rifampicin：RFP），ストレプトマイシン（streptomycin：SM），ピラジナミド（pyrazinamide：PZA）による抗結核治療を開始した（後日4剤は感受性ありと確認）。縦隔鏡検査の翌日（6月3日），初めて喀痰採取され抗酸菌塗抹検査は±，その後結核菌 PCR 陽性，培養検査陽性と判明した。その後6月25日より流動食開始したが特に問題なく経過した。

8月11日には食道穿孔は縮小したが，8月3日より胸部 X 線写真，CT では当初みられなかった中葉無気肺，両肺野浸潤影が出現しはじめ，8月17日には明らかに拡大傾向を認めた（Fig. 4）。喀痰検査では菌量は減少したものの，抗酸菌塗抹検査±を検出（培養は陰性）したため，8月21日に気管支鏡検査を施行した。気管分岐部付近に気管支結核を疑わせる白色小結節が散在しており，さらに舌区，中葉入口部に白色肉芽，穿孔病変が存在した（Fig. 5）。縦隔，肺門リンパ節結核が気管支に穿孔，気道内への散布により肺野病変を形成したと考えたため，8月21日に PZA，SM を終了と同時に感受性のあることを確認済みのエタンブトール（ethambutol：EB），レボフロキサシン（levofloxacin：LVFX）を開始した。9月17日には，食道穿孔の縮小，両肺野陰影の改善，喀痰の塗沫および培養陰性を確認し退院とした。

以後は外来治療継続し，11月6日には食道穿孔の閉鎖，気管支穿孔の退縮を確認した。しかし11月20日に右頸部腫脹が出現，皮膚が自壊し膿が流出，皮膚瘻を形成した。膿の検査では結核菌 PCR 陽性（塗沫陰性，培養陰性）を確認した。治療継続にて徐々に膿の流出は減少し，2010年4月19日で皮膚瘻は完全に閉鎖したものの，依然として縦隔リンパ節腫大，気管支穿孔は残存していた。2011年1月17日には気管支穿孔が閉鎖し，2011年4月25日には縦隔リンパ節腫大が軽度遺残しているものの，そのサイズに変化なく経過しているため，内服治療を終了とした。2012年7月17日では食道，気管支穿孔の再発はみられず，縦隔リンパ節もそのサイズに変化なく良

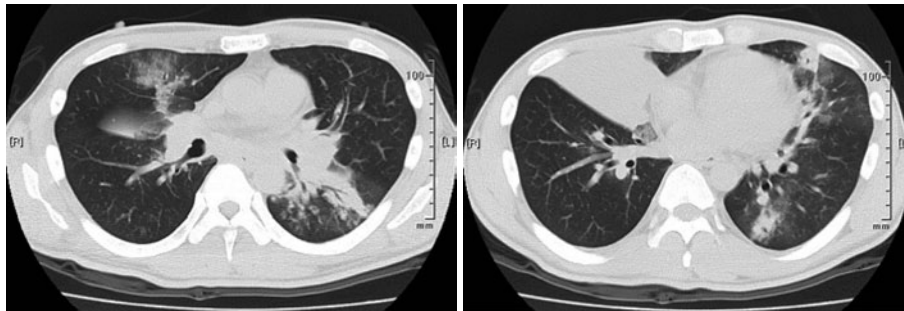


Fig. 4 The chest CT images 2.5 months after the diagnosis show atelectasis of the right middle lobe and bilateral infiltrative shadows.

好な経過である。

## 考 察

肺門（縦隔）リンパ節結核は、従来初感染結核の代表的な病型として理解され、通常は小児期にみられるとされていたが、近年 BCG 接種の普及や感染源の減少により本症の頻度は著しく減少し、さらに初感染の年齢も高齢化しつつある<sup>1)</sup>。また、多くは肺野病変を伴っており、病変が肺門（縦隔）リンパ節内に限局した症例はまれであることから、近年は成人に発症した肺門（縦隔）リンパ節結核の報告もなされており、その主な合併症は、食道、気管支、大動脈などの近接臓器への穿孔とされる<sup>2)3)</sup>。肺門（縦隔）リンパ節結核の発病形式としては、①初感染による初期変化群（primary complex）で、肺病変が小さく胸部 X 線写真上現れないもの、②初感染時に形成された小さいリンパ節病巣が、後に局所性に再燃し腫大したもの、③初期変化群が完全に治癒した後に起こる、いわゆる「secondary complex の 3 形式」が考えられている<sup>4)</sup>。自験例は、32 歳という既感染率が低下している年齢、東南アジアへの出張歴が多数あることから、発症形式としては①の可能性が最も高いと考えられた。

診断に際しては、喀痰での抗酸菌の陽性率は 30～40%と低く<sup>5)</sup>、特に自験例のように喀痰検査が不可であった症例では悪性腫瘍との鑑別診断が不可欠となる。CT 画像による鑑別診断では、リンパ節結核は内部の乾酪化病巣に一致して低濃度領域が存在し、周辺部が不均一に造影され、また炎症による線維化に伴い縦隔の脂肪織が消失するとされている。一方、悪性リンパ腫では造影後もほぼ均一の濃度を呈すため、CT 像でリンパ節結核と悪性リンパ腫の鑑別がある程度可能であるという<sup>6)</sup>。自験例では、縦隔鏡前には単純 CT しか撮影されておらず、この点は今後の症例に反映させるべきと考えられた。

確定診断については、荒井ら<sup>7)</sup>は、縦隔鏡が診断に有用であったとしており、自験例でも縦隔鏡による診断を施行した。施行直後の消化管出血から診断がついたため、

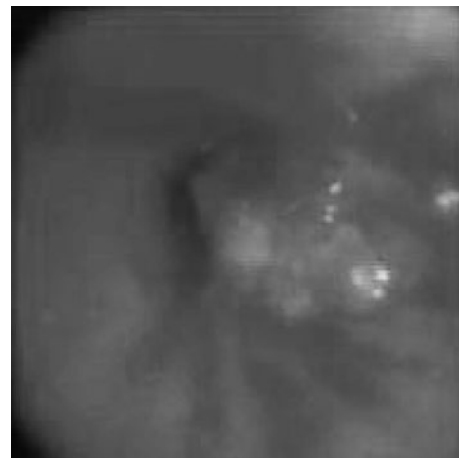


Fig. 5 The bronchoscopic finding in the right middle bronchus 2.5 months after the diagnosis shows a necrotic tissue with fistula.

全身麻酔下での検査は必要なかったとも思われたが、食道結核の診断について笠島ら<sup>8)</sup>が以下のように報告している。我が国の 36 例について、食道病変部の生検で診断の得られた症例が 6 例、培養にて結核菌を証明できた症例が 3 例と、食道内視鏡検査での診断は困難であることが推察された。したがって自験例でも縦隔鏡による診断は有用であったと考えられた。

食道は結核に罹患する頻度が全臓器のなかで最も低く、結核死亡患者の 0.15%にしか認めなかったと報告されている<sup>9)10)</sup>。その発症機序は、①結核菌を含んだ喀痰の嚥下による直接接触、②咽喉頭病巣からの直接移行、③気管周囲リンパ節などの隣接臓器からの穿破、④血行性やリンパ行性感染などに大別<sup>11)</sup>されるが、なかでも縦隔リンパ節結核による続発性のものが最も多く<sup>12)</sup>、自験例もこれが原因と考えられた。

診断直後より抗結核治療を開始したにもかかわらず、自験例では肺野への進展がみられた。肺門（縦隔）リンパ節結核から肺野への進展機序は、気道への浸潤や穿孔

が契機となり結核菌が肺野へ経気道性に散布されるためとされる<sup>13)</sup>。自験例でも、画像的に縦隔、肺門リンパ節と舌区枝、中葉枝との連続性がみられ、肺野病変が舌区、中葉を中心に存在することから上述の機序が考えられた。一方、抗結核治療を開始後にこれらの病態をきたした原因としては、初期悪化が関与すると考えられる。初期悪化とは、RFPを含む強化療法を行った場合、排菌は順調に陰性化しているにもかかわらず、治療開始3ヶ月頃までに胸部X線像悪化、胸水貯留、リンパ節腫大などを認めることを指し、肺結核の治療中20~30%に認められる<sup>14)</sup>。初期悪化により肺門（縦隔）リンパ節結核から肺野への進展をきたす時期は治療開始約2~6ヶ月とされる<sup>11,13)</sup>。初期悪化の発症機序としては、治療により細胞性免疫が回復し、抗結核薬により死滅した菌体成分に対する局所アレルギーが起こることによるためと考えられている<sup>15)</sup>。初期悪化の発症後は、肺野病変の悪化や胸水貯留などでは特別な治療は不要で、抗結核薬投与継続にて3~6ヶ月後には軽快することが多いとされるが、致死的な病変の出現（特に中枢神経系結核による神経麻痺等）や全身状態の悪化時はステロイド治療や外科的処置が必要となることがある<sup>16,17)</sup>。自験例では、肺野への進展をきたした2ヶ月半の時点では、喀痰の抗酸菌塗抹検査が陽性であり、初期悪化か真の悪化かの判断が難しく、薬剤の変更も試みた。しかし、その時点での喀痰検査は最終的には培養陰性であり、もともと感受性結核菌であったことや、順調に回復したことから一連の経過は初期悪化と考えてよいと思われる。

しかしながら、縦隔鏡翌日の治療開始前の喀痰検査で結核菌を検出していることから、初期悪化ではなく治療開始時に、すでに気管支内に結核病変が進展していた可能性も否定できない。Baranら<sup>18)</sup>は、成人の肺野病変のない肺門、縦隔リンパ節結核について検討したところ、17例中15例に気管支病変を認めたとしている。このことから、自験例のように肺門（縦隔）リンパ節結核が疑われた場合は、肺野病変の有無にかかわらず気管支鏡検査を積極的に行うべきと考えられた。また、自験例のような縦隔鏡によるリンパ節生検は、結核性の縦隔洞炎を起こす可能性もありうることを考えると、なおさら気管支鏡検査を先行させるべきであったと考えられた。

頭頸部の結核感染はリンパ節病変の頻度が最も高いとされる<sup>19,20)</sup>。その感染経路は、①縦隔からの上行性、②咽喉頭のリンパ装置を進入門戸として頸部に至る下行性がある<sup>21)</sup>。自験例では5ヶ月の時点で皮膚瘻を形成したが、後述するように上行性経路がその機序として考えられる。忽那<sup>22)</sup>によると、気管右側ではリンパ管が本幹を形成し右静脈角に注ぐのに対し、左側ではリンパ本幹は形成されず個々に胸管に合流するという解剖学的差異から、縦

隔リンパ節結核は右側に多いとされる。自験例での皮膚瘻部位は、リンパ管が右静脈角に注ぐ部位の近傍であることからリンパ行性の上行性経路が考えられた。さらに、皮膚瘻形成時の膿検査が塗抹、培養ともに陰性であった点から考えると、初診時は触診できなかったものの、小さい鎖骨上窩リンパ節結核が存在し、それが治療開始5ヶ月の時点で初期悪化による皮膚瘻を形成した可能性が考えられた。

リンパ節結核の治療に関しては、標準的な肺結核の治療に準ずるとされ、American Thoracic Society (ATS)のガイドラインでは6ヶ月程度の標準治療で十分であるとされている<sup>23)</sup>。我が国における報告でも、肺野に進展したリンパ節結核に関しては、9~12ヶ月で肺野病変、縦隔リンパ節腫大は十分に改善し治癒可能であったと報告されている<sup>13,24)</sup>。自験例では気管支穿孔の閉鎖には19ヶ月を要し、さらに縦隔リンパ節の縮小を継続的に認めるまでには23ヶ月を要したため、抗結核薬治療を23ヶ月継続した。しかし、5ヶ月半で出現した右頸部皮膚瘻からの膿検査では結核菌塗抹陰性が確認でき、その後8週間の時点で結核菌培養陰性を確認できたことから、この時点で治療終了としても問題なくその後順調に経過した可能性があり、この点は今後の症例に反映させるべきと考えられた。

まれな成人発症の肺門（縦隔）リンパ節結核が、食道、気管支、頸部皮膚に穿孔、進展した1例を経験した。縦隔鏡による速やかな診断と治療が奏効し、初期悪化による肺野への進展を認めたものの良好な経過が得られた。肺門（縦隔）リンパ節結核の診断が得られれば、肺野病変を認めない症例でも積極的な気管支鏡検査が必要と思われた。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

## 引用文献

- 1) 鈴木公典, 林 文, 山岸文雄, 他. 成人肺門リンパ節結核の治療中リンパ節の気管支内穿孔が疑われた1例. 結核 1991; 67: 127-31.
- 2) Gupta NM, Goenka MK, Vaiphei K. Isolated esophageal tuberculosis. Indian J Gastroenterol 1995; 14: 25-6.
- 3) Erlank A, Goussard P, Andronikou S, et al. Oesophageal perforation as a complication of primary pulmonary tuberculous lymphadenopathy in children. Pediatr Radiol 2007; 37: 636-9.
- 4) 鈴木 光, 岩井和郎. 青壮年にみられた肺門リンパ節結核の6例. 結核 1975; 50: 63-7.

- 5) 岩永知秋, 西田富昭, 谷口哲夫, 他. 著明な縦隔リンパ節腫大をきたした結核性縦隔リンパ節炎3自験例の臨床的検討. 日胸疾患会誌 1996; 34: 621-6.
- 6) Mendelson DS, Cohen BA, Krellenstein DJ, et al. Computed tomography findings in tuberculous mediastinitis. J Comput Tomogr 1987; 11: 123-7.
- 7) 荒井他嘉司, 稲垣敬三, 森田敬知, 他. 縦隔リンパ節結核症 12 例の臨床的検討. 日呼外会誌 1992; 6: 112-9.
- 8) 笠島浩行, 三上泰徳, 野崎 剛, 他. 粘膜下腫瘍の形で発症した食道結核の 1 例. 日臨外医会誌 1997; 58: 1781-5.
- 9) Lockard LB. Esophageal tuberculosis: a critical review. Laryngoscope 1913; 23: 561-83.
- 10) Rubinstein BM, Pastrana T, Jacobson HG. Tuberculosis of the esophagus. Radiology 1958; 70: 401-3.
- 11) 富永和作, 根引浩子, 荒川哲男, 他. 食道結核. 消化管症候群. 日臨 1994; 52 (別冊): 104-6.
- 12) Ohtake M, Saito H, Okuno M et al. Esophagomediastinal fistula as a complication of tuberculous mediastinal lymphadenitis. Intern Med 1996; 35: 984-6.
- 13) 水口正義, 田中栄作, 井上哲朗, 他. 抗結核剤治療中に肺野への進展を認めた頸部・縦隔リンパ節結核の 1 例. 結核 2005; 80: 19-23.
- 14) 浦上栄一, 三井三澄, 長沢誠司, 他. 肺結核強化化学療法中にみられる興味ある所見について. 日胸臨 1978; 37: 882-93.
- 15) 富岡洋海. 結核の悪化と再発. 泉孝英監修. 結核, 第 4 版. 東京: 医学書院. 2006; 77-9.
- 16) 高尾 匡, 塙平孝夫, 善家義貴, 他. 乾酪性肺炎の治療経過中に異時性, 多発性に胸膜結核腫が出現した一例. 日呼吸会誌 2010; 48: 55-9.
- 17) 大村春孝, 加治木章, 永田忍彦, 他. 初期悪化が死因に関与した低肺機能患者の肺結核症の 1 例. 結核 2011; 86: 509-14.
- 18) Baran R, Tor M, Tahaoglu K, et al. Intrathoracic tuberculous lymphadenopathy: clinical and bronchoscopic features in 17 adults without parenchymal lesions. Thorax 1996; 51: 87-9.
- 19) 酒井 修. 頸部リンパ節の画像診断—転移性腫瘍, 悪性リンパ腫および非腫瘍性病変—. 画像診断 2003; 23: 1346-59.
- 20) 佐藤弘坪, 佐恭宏鶴, 久森 徹, 他. 頸部結核性リンパ節炎による食道リンパ節瘻の 1 例. 日消外会誌 2005; 38: 1805-9.
- 21) 中島由槻, 吉田聡子. リンパ節結核 (結核性リンパ節炎). Mod Physician 2000; 20: 1127-30.
- 22) 忽那將愛. リンパ本幹の解剖学的研究. 熊本医会誌 1965; 39: 675-700.
- 23) Blumberg HM, Burman WJ, Chaisson RE, et al. American Thoracic Society/Centers for Disease Control and Prevention/Infectious Diseases Society of America: treatment of tuberculosis. Am J Respir Crit Care Med 2003; 167: 603-62.
- 24) 中村守男, 藤島清太郎, 堀 進悟, 他. 縦隔リンパ節腫大による反回神経麻痺と肺野への進展を呈した頸部・縦隔リンパ節結核の 1 例. 日呼吸会誌 2000; 38: 223-8.

**Abstract****A case of esophageal and endobronchial perforation, and cervical cutaneous fistula, secondary to hilar (mediastinal) tuberculous lymphadenitis**

Shotaro Iwakiri<sup>a</sup>, Kazumi Itoi<sup>a</sup>, Naoto Imamura<sup>a</sup>, Hiroko Uematsu<sup>a</sup>,  
Kazuo Endo<sup>b</sup> and Masataka Hirabayashi<sup>b</sup>

<sup>a</sup>Department of Respiratory Surgery, Hyogo Prefectural Amagasaki Hospital

<sup>b</sup>Department of Respiratory Medicine, Hyogo Prefectural Amagasaki Hospital

A 32-year-old man was admitted complaining of fever and cough. Chest X-ray and computed tomography showed left hilar and mediastinal lymph node swelling. We performed a lymph node biopsy by mediastinoscopy that was diagnosed as hilar (mediastinal) tuberculous lymphadenitis. Just after mediastinoscopy, the patient vomited with hematemesis, and was diagnosed as esophageal perforation resulting from hilar (mediastinal) tuberculous lymphadenitis by emergent upper gastrointestinal endoscopy. He was treated with antituberculous drugs. Two-and-half-months later, a chest X-ray and CT films showed infiltrative shadows in the bilateral lung fields, and we diagnosed as endobronchial perforation because of hilar (mediastinal) tuberculous lymphadenitis by bronchoscopy. Five months later, right cervical cutaneous fistula was revealed. Thereafter the patient improved gradually. Later, after 5, 10, and 19 months of antituberculous chemotherapy, the esophageal perforation, the cervical cutaneous fistula and the endobronchial perforation were respectively reduced and eventually disappeared. After 23 months, the hilar (mediastinal) lymphadenopathy was reduced in size, and the antituberculous chemotherapy was finished. After 36 months, no recurrent signs are seen and the patient is showing good statement.