

• 短篇论著 •

结核性支气管食管瘘一例并文献复习

朱建坤 乔高峰 王成 张运曾 刘大伟 金锋

【摘要】 作者总结分析了山东省胸科医院收治的 1 例结核性支气管食管瘘患者的临床表现,以及辅助检查、诊治过程、随访等病历资料,并结合文献进行回顾性分析。该患者因“间断发热 4 个月,胸骨后疼痛 2 个月,进食呛咳 4 d”入院,经胸部 CT、气管镜及胃镜检查确诊为结核性支气管食管瘘,经抗结核药物治疗、食管支架置入并行气管镜下注药、冻融等治疗,患者支气管食管瘘瘘口愈合。通过文献复习认为结核性支气管食管瘘临床罕见,经胸部 CT、气管镜及胃镜等检查可明确诊断,进行积极的抗结核药物治疗及内镜下食管支架置入、局部注药、冻融等联合治疗有助于瘘口愈合。

【关键词】 气管食管瘘; 结核,肺; 结核,淋巴结; 诊断; 结果与过程评价(卫生保健)

Broncho-esophageal fistula secondary to tuberculosis: a case report and review of the literature ZHU Jian-kun, QIAO Gao-feng, WANG Cheng, ZHANG Yun-zeng, LIU Da-wei, JIN Feng. Department of Thoracic Surgery, Shandong Province Chest hospital, Jinan 250013, China
Corresponding author: JIN Feng, Email: 2547875348@qq.com

【Abstract】 The clinical, auxiliary examination and pathological data of a case with tuberculous bronchoesophageal fistula in Shandong Chest Hospital was collected, and the literature were analyzed retrospectively. The patient was admitted to hospital because of intermittent fever for 4 months, retrosternal pain for 2 months and eating cough for 4 days. It was diagnosed by chest CT, bronchoscopy and gastroscopy examination. After treatment of anti-tuberculous therapy, esophageal stented local injection and freeze thawing treatment, the bronchial esophageal fistula was cured. Through the literature review, tuberculous bronchoesophageal fistula was found is rare, and could be diagnosed by the chest CT scan, bronchoscope and gastroscopy test. Anti-tuberculous therapy and endoscopic esophageal stenting, local injection and freeze thawing treatment contributed to the healing of the fistula.

【Key words】 Tracheoesophageal fistula; Tuberculosis, pulmonary; Tuberculosis, lymph node; Diagnosis; Outcome and process assessment (health care)

气管及支气管与邻近的食管发生病理性交通,即为呼吸道食管瘘,按发生部位可分为:气管食管瘘(tracheoesophageal fistula, TEF)及支气管食管瘘(bronchoesophageal fistula, BEF),多见于肺癌、食管癌、外伤、食管异物及医源性损伤等。结核所导致的呼吸道食管瘘临床罕见,现报道山东省胸科医院胸外科收治的 1 例结核性支气管食管瘘患者,并进行相关文献复习。

临床资料

患者,女,24 岁。因“间断发热、咳嗽 3 个月,胸骨后疼痛 1 个月,饮水呛咳 4 d”于 2014 年 8 月 2 日收住入院。患者曾经在当地医院行胸部 CT 检查:右肺下叶基底段见结节、条索及斑片影,并发现纵隔淋巴结肿大,诊断为“肺结核、纵隔淋巴结”,给予 H-R-Z-E(H:异烟肼;R:利福平;Z:吡

嗪酰胺;E:乙胺丁醇)抗结核治疗。4 d 前出现饮水呛咳,在当地行消化道钡餐双对比造影检查,考虑“食管气管瘘”,随后转来我院诊治。患者既往体健。入院后体格检查:患者为青年女性,神志清,精神可;体温 37.5℃;浅表淋巴结未触及肿大;双肺呼吸音粗,右下肺可闻及湿性啰音;其余检查均未见异常。辅助检查:白细胞 $6.81 \times 10^9/L$,中性白细胞分类 0.70,红细胞沉降率(ESR)35 mm/1 h;PPD 试验硬结平均直径为 21 mm;结核感染 T 细胞斑点试验(T-SPOT. TB):早期分泌性抗原靶 6(ESAT-6)为 25 个斑点形成细胞(SFC);培养滤液蛋白 10(CFP-10)为 40 个 SFC(生物参考区间为 0~6 SFC)。抗酸杆菌涂片:阴性。胸部 CT 检查:右肺中叶外侧段、下叶背段、基底段及左肺下叶基底段见多发的结节、斑片、斑点样高密度影,密度不均,边界较清,双侧段及以上支气管开口通畅,纵隔及肺门 2R、4R、4L、7(7 区淋巴结)、8(8 区淋巴结)、10R 区(R 为右侧,L 为左侧)见多个直径约 10 mm 的淋巴结影,部分钙化;右主支气管受压、管腔略窄,左主支气管后壁与食管浅表分隔连续性中断(图 1)。气管镜检查:气管隆突黏膜充血,明显增宽,隆突左侧见 1 个

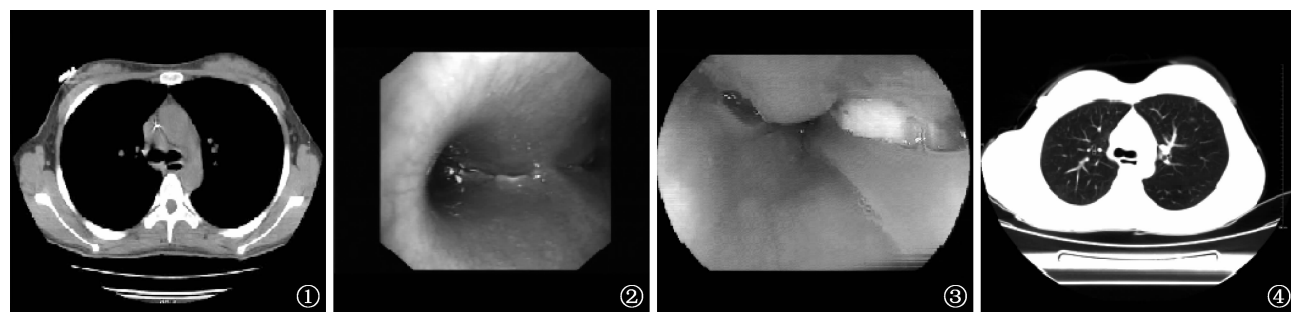


图 1 患者,女,24 岁。CT 检查,示左主支气管后壁与食管浅表分隔连续性中断 图 2 气管镜检查,示隆突左侧有 1 个一字形瘘口,瘘口后壁为膨隆食管壁,远端右前方见食管瘘口 图 3 胃镜检查,示食管左前壁见长约 1 cm 瘘口,并见干酪物附着,瘘口远端见纵行肉芽增生 图 4 术后 21 个月 CT 复查,示支气管与食管管腔光滑,未见瘘管相通

一字形瘘口,瘘口后壁为膨隆食管壁,远端右前方见食管瘘口(图 2),隆突右侧见淋巴结结核膨隆于右主支气管开口,表面见少许干酪物,余肺各支段未见异常。气管镜活检组织病理检查:支气管黏膜上皮呈鳞状上皮化生,并查见大量炎性肉芽组织。胃镜检查:距门齿约 25 cm 处食管左前壁见长约 1 cm 的瘘口,并见干酪物附着,瘘口远端见长约 2 cm 的纵行肉芽增生(图 3)。食管活检组织病理检查:示小团鳞状上皮及炎性坏死。临床诊断:肺结核、纵隔淋巴结结核、结核性支气管食管瘘。给予患者中心静脉营养及鼻饲等支持治疗,应用异烟肼、利福平、乙胺丁醇、吡嗪酰胺四联抗结核药物,应用左氧氟沙星抗感染及加强抗结核药物治疗。对患者瘘口部位施行可回收式覆膜食管支架置入,支架长约 12 cm,内径 1.8 cm,上缘距门齿 20 cm,患者可耐受。术后给予患者经口流质饮食并过渡至半流质饮食;同时每周给予气管镜下行透壁淋巴结冷冻治疗,并隆突下淋巴结穿刺注入异烟肼 0.2 g/次。经过上述治疗 1 个月后进行胸部 CT 复查,示双肺病灶有所吸收好转,右肺下叶病灶较前吸收,右主支气管受压、管腔略窄,食管内见金属支架影。气管镜复查,示隆突左侧近左主支气管瘘口较前缩小。患者好转出院,出院后继续进行四联抗结核药物治疗。于 2014 年 10 月 31 日行气管镜复查,示隆突及周围外压膨隆、黏膜充血,隆突增宽,原瘘口难以探查;右主支气管内侧壁见大量肉芽组织增生。于 2014 年 12 月 1 日行胸部 CT 复查,示右肺病灶较前吸收,于 4R、7、10R 区见多个肿大淋巴结,直径约 10 mm,邻近右主支气管受压、管腔略窄。胃内见金属支架影,管腔增宽,食管支架下移进入胃腔。患者进食半流质无明显不适,后食管支架经排便排出。2015 年 6 月 2 日行胸部 CT 复查,示双肺病灶大部吸收,双肺少许淡薄影,纵隔内未见明显肿大淋巴结影,7、10R 区见钙化密度影,扫描野未见气管、食管相通(图 4)。随访 2 年,患者痊愈无不适。

文献复习

通过万方数据库对中文文献进行检索,检索词为:结核、

气管食管瘘和(或)支气管食管瘘,自 1998 年 1 月 1 日至 2017 年 4 月 1 日共检出结核性呼吸道食管瘘相关文献 2 篇。通过 PubMed 数据库以“fistula”和“tuberculosis”与“tracheo-esophageal”、“bronchoesophageal”为检索词,自 1976 年 1 月 1 日至 2017 年 4 月 1 日共检索到相关文献 35 篇。将临床资料不详细及相似文献去除,选取其中在诊断与治疗方面具有代表意义的 9 篇文献进行总结,具体见表 1。

讨 论

结核性气管或支气管食管瘘常由纵隔淋巴结结核侵蚀引起,受累淋巴结常为气管、支气管旁淋巴结、隆突下淋巴结和食管旁淋巴结,病理特征为结核性肉芽肿及干酪样坏死,具有较强的侵蚀性。Krishnan 等^[10]报道 1 例因纵隔淋巴结结核破溃侵及主动脉及气管壁导致主动脉-气管瘘而引起致命性大咯血死亡的患者。故当纵隔淋巴结结核发生液化、破溃时常侵蚀周围的组织器官,临床较常侵犯隆突及右侧支气管,病理表现为气道黏膜充血、水肿,表面溃疡糜烂、穿孔,引起支气管内膜结核或气道播散。

纵隔淋巴结结核侵入食管,形成食管结核或食管瘘比较罕见,发生率大约 0.3%^[11]。Jain 等^[11]报道 1 例隆突下淋巴结结核侵蚀食管,致食管溃疡出血;食管镜示食管偏心性溃疡累及食管周长的 50%,活检显示干酪性上皮样肉芽肿。如纵隔淋巴结结核浸润并穿透气管和(或)支气管膜部及食管全层,导致气管、食管相通,即为气管食管瘘,一旦出现,常引起较为严重的临床症状。

结核性呼吸道食管瘘在临床上常表现为:(1)肺部感染症状,高热、咳嗽、咯痰、呼吸困难等。(2)反流症状,进食呛咳等。(3)结核中毒症状,低热、盗汗、乏力,消瘦等。

痰涂片,细菌培养查到结核分枝杆菌为诊断结核的金标准;胸部 CT 扫描可见气管或支气管与食管相通,气管镜及食管镜可见瘘口则可明确诊断。对于较小的瘘口可口服美蓝后行气管镜检查,如有蓝色分泌物则可确诊。

结核性气管食管瘘比较罕见,由于患者症状体征明显,

表 1 结核性气管食管瘘相关文献总结

作者	例数	临床资料	备注
廖理粤等 ^[1]	1	女,19 岁。以发热、饮水呛咳为主要表现,经胸部 CT、超声支气管镜(EBUS)检查,以及口服美蓝实验等证实支气管食管瘘。给以鼻饲,经 H-R-Z-E 抗结核药物治疗,2 个月后瘘口愈合。	国内首次明确报道纵隔淋巴结结核引起的支气管食管瘘
曹毅等 ^[2]	1	男,23 岁。因“乏力 3 个月,进食呛咳 1 周”收住入院。胸片示双肺亚急性性血行播散性肺结核。电子胃镜检查,示食管距门齿 25 cm 处可见 0.3 cm×0.5 cm 不规则溃疡灶,活检组织病理检查诊断为食管结核。食管钡餐造影检查,在主动脉弓水平可见对比剂流入右侧支气管,提示食管支气管瘘。给予四联抗结核药物及鼻饲胃肠营养等综合治疗,2 个月后食管钡餐造影复查示瘘管闭合	临床诊断为食管结核并食管支气管瘘,但未能提及是否有纵隔淋巴结结核
Wigley 等 ^[3]	1	老年患者,无明显结核中毒症状,仅表现为饮水呛咳,痰中抗酸染色阳性及结核分枝杆菌培养阳性,经保守治疗,瘘口愈合。	第 1 例结核所致气管食管瘘
Cooper 等 ^[4]	1	老年患者,结核性气管食管瘘,通过抗结核药物治疗并 Mousseau-Barbin 支架置入解决患者的吞咽困难及梗阻,3 个月后支架脱落,影像学及内镜检查示瘘口闭合	首次行介入治疗获得成功
Lado Lado 等 ^[5]	1	85 岁患者,继发于肺结核。纵隔淋巴结肿大,出现支气管食管瘘,痰查抗酸杆菌阳性,食管及支气管活检组织病理检查结果符合肉芽肿。应用抗结核治疗 1.5 个月,瘘口缩小,治疗 9 个月痊愈。	明确为纵隔淋巴结结核致支气管食管瘘
Samhan 等 ^[6]	1	44 岁男性患者,因终末期肾病行肾移植,受者的结核分枝杆菌感染患者。服用免疫抑制剂后出现发热、饮水呛咳,胸部 CT 检查示气管食管瘘,痰抗酸染色阳性、结核分枝杆菌培养阳性,经抗结核药物治疗,并鼻饲营养 8 周后进食,继续抗结核药物治疗 20 个月痊愈	作者认为免疫缺陷可促使结核性气管食管瘘的发生
Hatakeyama 等 ^[7]	1	71 岁男性患者。食管钡餐造影显示食管支气管瘘,胸片显示左胸腔积液,诊断为结核性食管气管瘘。应用初治抗结核药物治疗方案无效,痰培养鉴定为多重耐药。给予更换化疗药物继续治疗后,患者临床症状消失,瘘口愈合	提示应用初治方案效果不佳时需考虑耐药结核病的可能
Macchiarini 等 ^[8]	1	78 岁女性患者。纵隔淋巴结结核并发食管气管瘘,一期食管修补加气管切除吻合术,获得治愈。	临床表现及影像学误诊为恶性气管食管瘘
Shen 等 ^[9]	5	作者对 35 例非肿瘤性气管食管瘘的手术效果进行分析,其中结核感染所致 5 例,发现手术并发症发生率高达 54.3%,手术死亡率 5.7%,复发率 8.6%。	认为结核引起的气管或支气管食管瘘保守治疗为首选

诊断相对容易,但在如何进行治疗上有较大分歧和争议。规范的抗结核药物治疗为治疗气管和(或)支气管食管瘘的根本,并通过其他的一般治疗及对症治疗,改善患者症状,包括:充分引流、控制感染、选用敏感抗生素治疗、多次行痰液及血培养并依据药物敏感性试验结果调整抗生素;以及瘘口较小者可进食流质,口服盐水冲洗(以利创面清洁);瘘口较大者需给予鼻饲或空肠营养,甚至于输白蛋白及血浆,纠正低蛋白血症及贫血等。

经气管镜下冷冻联合药物局部注射治疗透壁性纵隔支气管旁淋巴结结核,可缩短气管食管瘘的愈合时间。张景熙等^[12]通过对 23 例透壁性纵隔淋巴结结核 41 个病灶进行上述治疗,平均冷冻治疗 1~6 次,药物灌注 6~11 次;发现治疗后(3.4±0.6)个月,气管镜检查见黏膜光滑,支气管通畅,个别管壁处有轻度瘢痕组织增生,远期未见复发;故认为冷冻联合局部灌注是一种治疗透壁性淋巴结结核的简单、安全、有效的方法。笔者在本例患者的治疗过程中给予镜下冷冻、穿刺注药治疗,肿大纵隔淋巴结逐渐消失。

内镜外科技术的发展,为气管食管瘘的治疗提供了一个

微创有效的方式。支架置入在理论上可防止食物及分泌物通过瘘口污染呼吸道,减少吸入性肺炎,患者可以经口进食,保证了营养支持,并且有利于行机械通气。肺癌所致的食管气管瘘由于一般不伴有食管狭窄,故放置覆膜气管支架治疗已成为首选,但在结核所致的食管气管瘘中,尚无放置气管支架的报道。对于本患者,笔者基于以下考虑放置食管支架:(1)本例患者淋巴结结核脓肿穿透气管、食管,病灶大部分向气管隆突方向挤压,镜下可见气管侧为病灶突入管腔,而食管侧多为溃疡形成,故食管侧更有利于放置支架。(2)患者有明显的反流症状及肺部感染症状。(3)气管镜下注药、冻融、引流等较食管侧方便。但本例患者支架置入后出现脱落,与食管扩张、覆膜支架与食管黏合不严有关。目前,已经有食管双支架问世,即裸支架固定,覆膜支架封堵瘘口,可有效解决食管支架脱落的问题^[13]。

笔者认为,结核性支气管食管瘘虽临床罕见,但诊断并不困难。治疗以全身应用抗结核药物为基础,同时进行局部病变的治疗。本例患者通过胃镜下食管支架置入,防止食物及消化液通过瘘口污染气道,预防吸入性肺炎,并且患者可

以经口进食,有助于营养支持治疗;同时联合内镜下行透壁淋巴结结核的冻融及抗结核药物的局部注射,促进结核病灶的引流,控制局部炎症,减轻局部黏膜充血、水肿,从而有助于呼吸道食管瘘的愈合。一般经以上综合治疗,约 3~6 个月 后呼吸道食管瘘可以愈合,但如经上述积极治疗 2~3 个月,瘘口无愈合倾向,则应考虑进行外科手术治疗。

参 考 文 献

[1] 廖理粤,吴华,张挪富,等. 纵膈淋巴结结核引起支气管食管瘘一例及文献复习. 中华结核和呼吸杂志, 2013, 36 (11): 829-832.

[2] 曹毅,白玉君,续延青,等. 食管结核合并食管支气管瘘 1 例. 临床荟萃,2006,21(10):743.

[3] Wigley FM, Murray HW, Mann RB, et al. Unusual manifestation of tuberculosis: TE fistula. Am J Med, 1976, 60(2): 310-314.

[4] Cooper G, Ritchie AJ, Gibbons JR. Use of a Mousseau-Barbin tube in the management of a tuberculous tracheo-oesophageal fistula. Thorac Cardiovasc Surg, 1987, 35(6):382-384.

[5] Lado Lado FL, Golpe Gómez A, Cabarcos Ortíz de Barrón A, et al. Bronchoesophageal fistula secondary to tuberculosis. Respiration, 2002, 69(4):362-365.

[6] Samhan M, Al-Mousawi M, Halim M, et al. Tuberculous tracheo-esophageal fistula in a renal transplant patient. Saudi J

Kidney Dis Transpl, 2005,16(2):198-200.

[7] Hatakeyama N, Okano Y, Miki M, et al. Case of multi-drug resistant tuberculosis complicated with bronchoesophageal fistula. Nihon Kokyuki Gakkai Zasshi, 2004, 42 (8): 755-759.

[8] Macchiarini P, Delamare N, Beuzeboc P, et al. Tarcheoesophageal fistula caused by *Mycobacterial tuberculosis* adenopathy. Ann Thorac Surg, 1993,55(6):1561-1563.

[9] Shen KR, Allen MS, Cassivi SD, et al. Surgical management of acquired nonmalignant tracheoesophageal and bronchoesophageal fistula. Ann Thorac Surg, 2010, 90(3):914-918.

[10] Krishnan B,Shaukat A,Chakravorty I. Fatal haemoptysis in a young man with tuberculosis mediastinal lymphadenitis. A case report and review of the literature. Respiration, 2009, 77 (3):333-336.

[11] Jain SS, Somani PO, Mahey RC, et al. Esophageal tuberculosis presenting with hematemesis. World J Gastrointest Endosc, 2013, 5 (11):581-583.

[12] 张景熙,白冲,黄海东,等. 经气管镜冷冻联合药物灌注对透壁型纵膈支气管旁淋巴结结核的治疗作用. 中华结核和呼吸杂志,2011,34(12):898-903.

[13] 马洪明,邹珩,张洁莉,等. 食道双支架置入治疗食管气管瘘临床初探. 基础医学与临床,2015,35(7):968-971.

(收稿日期:2017-07-21)
(本文编辑:薛爱华)