

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD430128>

Хронический пищеводный свищ как редкая причина вторичного остеомиелита грудного отдела позвоночника

В.А. Заря, П.В. Гаврилов, М.Е. Макогонова, А.Р. Козак, А.А. Вишневский

Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии, Санкт-Петербург, Российская Федерация

АННОТАЦИЯ

Инфекционные заболевания позвоночника представляют собой воспалительные деструктивные заболевания органа и его структурных элементов в результате инфицирования гематогенным, лимфогенным или контактным путём, в том числе могут являться осложнением хирургического вмешательства. При постановке диагноза крайне важно оценивать в совокупности анамнез, клиническую картину, а также данные лабораторных исследований и лучевой диагностики. В работе представлен клинический случай вторично развившегося спондилита позвонков ThVII–ThVIII вследствие пищевода свища. При первичной диагностике спондилит связали со спинальной анестезией, которая проводилась за 6 месяцев до начала заболевания, так как имел место свищевой дефект на коже в поясничной области. По этому поводу трижды проводились оперативные вмешательства в хирургическом стационаре по месту жительства. Данные эндоскопического исследования и жалобы пациентки на связь между приёмами пищи, появлением болей и характером отделяемого из свища не были приняты врачами изначально во внимание. С помощью дополнительного обследования, включающего компьютерную томографию пищевода с пероральным контрастированием и компьютерно-томографическую фистулографию, был установлен основной диагноз «Свищ пищевода», а спондилит грудного отдела позвоночника оказался лишь вторичным осложнением.

Таким образом, окончательный диагноз при болях в спине, обусловленных не только инфицированием, но и являющихся осложнением хирургического вмешательства, должен формулироваться после проведения дифференциальной диагностики с альтернативными заболеваниями позвоночника.

Ключевые слова: остеомиелит; спондилит; свищ пищевода.

Как цитировать:

Заря В.А., Гаврилов П.В., Макогонова М.Е., Козак А.Р., Вишневский А.А. Хронический пищеводный свищ как редкая причина вторичного остеомиелита грудного отдела позвоночника // *Digital Diagnostics*. 2023. Т. 4, № 3. С. 403–410. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD430128>

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD430128>

Chronic esophageal fistula as a rare cause of secondary osteomyelitis of the thoracic spine

Valeriya A. Zarya, Pavel V. Gavrilo, Marina E. Makogonova,
Andrey R. Kozak, Arkadiy A. Vishnevskiy

Saint-Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology, Saint Petersburg, Russian Federation

ABSTRACT

Infectious diseases affecting the spine are inflammatory destructive diseases that involved the organ and its structural elements as a result of infection by hematogenic, lymphogenic, or contact pathways, including may be a complication of surgical intervention. In arriving at an accurate diagnosis, it is extremely important to evaluate the anamnesis, the clinical picture, as well as the data of laboratory studies and radiation diagnostics in the aggregate.

This article presents a clinical case with the development of secondary ThVII–ThVIII vertebral spondylitis due to esophageal fistula. At the initial diagnosis, spondylitis was associated with spinal anesthesia performed six months prior to onset of the disease, as there was a fistulous defect on the skin in the lumbar region. Consequently, surgical interventions were performed three times in a surgical hospital at the place of residence. The data from the endoscopic examination, as well as the patient's complaints regarding the relationship between meals, the appearance of pain, and the nature of the discharge from the fistula were not taken into account by doctors initially. With the help of an additional examination, including computed tomography of the esophagus with oral contrast and computed tomography fistulography, the main diagnosis was esophageal fistula. Thoracic spondylitis was only a secondary complication.

Thus, the final diagnosis of back pain and fistula in the lumbar region should be formulated after differential diagnosis with alternative diseases of the spine.

Keywords: osteomyelitis; spondylitis; esophageal fistula.

To cite this article:

Zarya VA, Gavrilo PV, Makogonova ME, Kozak AR, Vishnevskiy AA. Chronic esophageal fistula as a rare cause of secondary osteomyelitis of the thoracic spine. *Digital Diagnostics*. 2023;4(3):403–410. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD430128>

Received: 16.05.2023

Accepted: 22.08.2023

Published: 30.08.2023

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD430128>

慢性食管瘘作为继发性胸椎骨髓炎的罕见病因

Valeriya A. Zarya, Pavel V. Gavrilo, Marina E. Makogonova,
Andrey R. Kozak, Arkadiy A. Vishnevskiy

Saint-Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology, Saint Petersburg, Russian Federation

简评

脊柱感染性疾病是由于血源性、淋巴原性或接触性感染（包括手术并发症）引起的器官及其结构元素的炎症性破坏性疾病。在进行诊断时，对病史、临床表现以及实验室检查和放射诊断数据进行评估是极为重要的。

本文介绍一例因食管瘘引起的ThVII-ThVIII椎骨继发性脊椎炎的临床病例。在最初诊断时，医生认为脊椎炎与脊髓麻醉有关，而脊髓麻醉是在发病前6个月进行的，因为腰部皮肤上有瘘管缺损。这次在居住地的外科医院进行了三次手术治疗。医生最初并没有考虑到内窥镜检查结果以及病人关于进食、疼痛和瘘管分泌物性质之间关系的主诉。在额外检查的帮助下，包括口服造影剂的食道CT扫描和瘘管CT造影，确定了食管瘘的主要诊断，而胸椎脊椎炎只是次要并发症。

因此，在存在背痛的原因不仅是感染，还可能是手术治疗的并发症的情况下，最终诊断应该是在与其他脊柱疾病进行鉴别诊断后再做出的。

关键词：骨髓炎；脊椎炎；食管瘘。

引用本文：

Zarya VA, Gavrilo PV, Makogonova ME, Kozak AR, Vishnevskiy AA. 慢性食管瘘作为继发性胸椎骨髓炎的罕见病因. *Digital Diagnostics*. 2023;4(3):403–410. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD430128>

收到: 16.05.2023

接受: 22.08.2023

发布日期: 30.08.2023

现实性

脊柱感染性疾病是指脊柱及其结构元素（椎体、椎间盘、韧带结构、椎间关节）因血源性、淋巴或接触途径感染或手术干预并发症（术后、医源性）而由任何细菌病原体引起的炎症性破坏性疾病[1]。

脊椎炎有感染性和非感染性（无菌性）之分。感染性脊椎炎的病因是细菌、霉菌或寄生虫侵袭。脊椎炎的感染过程可能是血源性（脓毒性）或接触性传播[2-4]。感染过程也可能是操作后（医源性）并发症[5-8]。个别作者证实，食管穿孔时会出现脊柱炎。在这种情况下，感染过程可能向后扩散。同时，这种感染过程会重新影响颈椎或胸椎。因此，在I. Janssen等人的研究[9]中介绍了一些因食管穿孔而导致的颈椎和胸椎间盘炎病例，这些患者都有食管癌病史。患者接受了综合治疗。其中一些患者的食管瘘复发（之前这些患者曾接受过保守治疗和手术治疗）。还描述了一个例子：一名患者在脊椎炎发病前2个月吞咽并自己拔出一根牙签。该患者的脊椎炎伴有硬膜外和椎旁脓肿。H. Fonga-Djimi等人的出版物[10]介绍了一例因异物（玩具车的轮子）导致食管穿孔的临床病例，食管穿孔并发纵隔炎和椎间盘炎。G. M. Wadie等人[11]描述了对一名儿童的临床观察，该儿童颈椎间盘炎和椎旁软组织蜂窝织炎的病因是吞入一枚别针。别针在喉咙入口处穿孔了咽后壁。在A. van Ooij等人的研究[12]中描述了因鱼骨卡在患者食管中而导致的颈椎炎。

感染侵袭胸部会导致积脓、心包炎和纵隔炎。脊椎炎可引起继发性积脓和心包炎。前胸腰椎和腰椎的感染可能导致膈下脓肿、腹膜炎和腰肌脓肿。

对于感染性脊椎炎来说，必须正确查明病因和致病因子，以确定正确的治疗方法。放射诊断方法在脊椎炎的诊断中起着重要作用。然而，放射影像并不能可靠地确定感染性病变的性质和病

因。因此，在进行诊断时，对病史、临床表现、实验室检查和放射诊断数据进行综合评估是极为重要的。

我们介绍一例因慢性食管瘘而导致继发性胸椎病变的罕见病例。

临床病例描述

关于病人的信息

患者，42岁。三年前，她开始受到背痛和腰部瘘管的困扰。根据病史，六个月前她曾因剖腹产而接受脊髓麻醉。病情加重并伴有瘘管开口的情况每年大约发生3-4次。初次检查时，医生进行了磁共振成像（MRI）。磁共振成像结果显示了，ThVII-ThVIII出现骨纤维化（图1）。这既可能是静止性脊椎炎，也可能是挛缩性脊柱病变。

患者在其他医院接受了三次手术治疗（瘘管切开术和脓肿切开术）。手术标本出现了对阿莫西林、氨苄西林、头孢噻肟、万古霉素、强力霉素和美罗培南敏感的溶血性链球菌。医生对患者进行了有针对性的抗生素治疗。但是，这种治疗没有起到任何积极作用。在俄罗斯联邦卫生部圣彼得堡国立咽喉病研究所（Saint-Petersburg State Research Institute of Phthisiopulmonology of the Ministry of Healthcare of the Russian Federation）住院治疗前，患者接受了电子计算机断层扫描（CT）。根据CT数据，有先前患过的ThVII-ThVIII脊椎炎和右侧腰大肌脓肿的迹象（图2）。

在进一步询问病史时，患者表示进食（尤其是流质食物）、疼痛发作和腰部瘘管病理内容物的性质之间存在关联。根据这些主诉，医生使用口服造影剂对食管进行了CT扫描。根据CT检查结果，在ThVII水平发现了一条从食管进入右侧椎旁间隙直至ThX水平的瘘道，右侧还发现了胸膜包围性脓胸。为了明确瘘道的范围，检查还辅以CT瘘管造影。在进行CT瘘

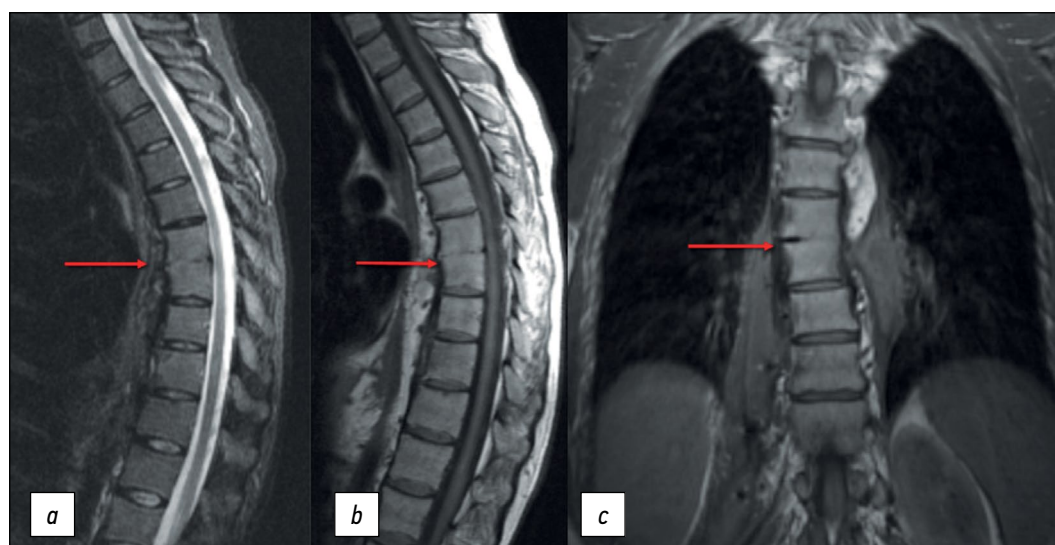


图1. 胸椎磁共振成像：STIR模式，矢状面（a）；T1-WI模式，矢状面（b）；T1-WI模式，冠状面（c）。箭头所示为ThVII-ThVIII骨纤维化的。

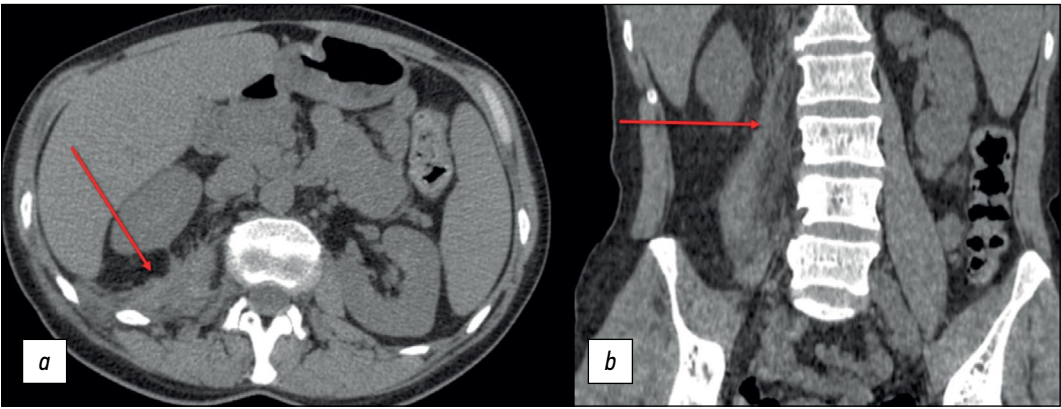


图2。腰椎计算机断层扫描：软组织模式，轴向面（a）；软组织模式，冠状面（b）。箭头所示为右侧腰肌脓肿。

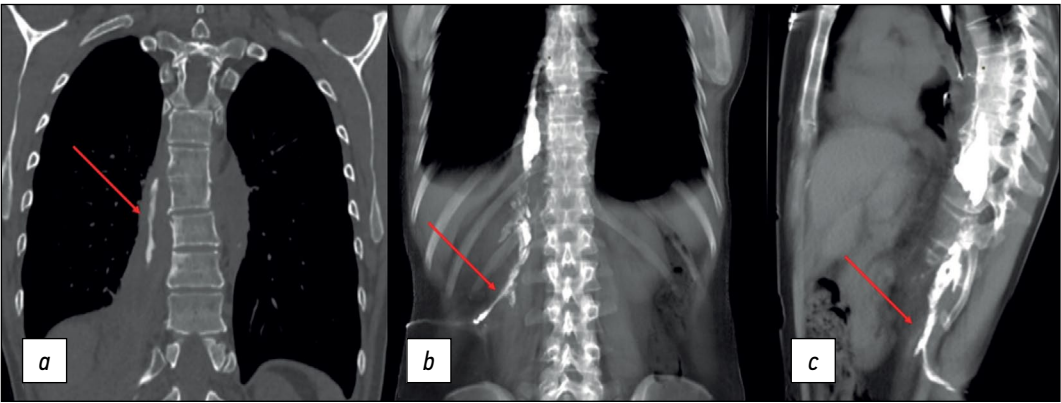


图3。口服造影剂的食管计算机断层扫描，冠状面（a）；瘘管计算机断层扫描，多平面重建（MPR），冠状面和矢状面（b，c）。箭头所示为从食管进入右侧椎旁间隙的瘘道，从ThVII到ThX水平。



图4。胸椎和腰椎的磁共振成像，T2-WI，冠状面。左侧（a）为ThVII-ThVIII骨纤维化和椎旁脓肿（箭头），右侧为气泡（b）。

管造影时，将造影剂（Yopromid-370）注入右侧腰部椎体LIII水平的瘘管缺损处。结果显示了，从右侧大腰肌肌肉到ThVII椎骨水平，可以看到一个瘘管通道。在同一水平，瘘管与食管腔相通，造影剂从食管腔流入（图3）。

胸椎和腰椎的对照磁共振成像显示了，ThVII-ThVIII椎体和两侧椎旁脓肿的变化稳定（图4）。除红细胞沉降率（30mm/h）外，所有实验室指标都在正常范围内。为了明确患者的进一步治疗计划，医生为其进行了食管胃十二指肠镜检查。

食管胃十二指肠镜检查发现了，左后壁有一条长达0.5cm的瘘道。瘘道内衬为食管上皮，并有肉芽覆盖。确诊为中三分之一食管瘘。在对之前的食管胃十二指肠镜检查结果进行回顾性分析时，发现了所述的食管缺损。它被解释为憩室。然而，其他医院并未考虑这一信息。

因此，根据全部临床数据和放射学检查结果，多学科小组确定了最终诊断：“食管下三分之一处食管胸膜瘘，右胸膜慢性包围性脓胸。ThVII-ThVIII慢性接触性骨髓炎伴瘘管”。患者被转到胸外科，以接受食管瘘切除术。

讨论

脊椎炎的感染源可能是任何感染过程，如龋齿、耳鼻喉科感染、蜂窝织炎、心内膜炎等。脊柱结构的病变可通过血原性或接触性途径发生，包括穿透性创伤，也包括医源性病变。考虑到所获得的数据，发生一些问题，接受的治疗为何无效，脊椎炎和食管瘘哪个先发生？

支持感染性脊椎炎为原发性过程的主要论据是病史中存在硬膜外麻醉。然而，在此类外科手术中，硬膜外麻醉是在LIII-V椎体水平进行的，而受影响的椎体则位于更高的位置。左侧椎旁脓肿（食管瘘的对侧）的存在可能是支持原发性脊椎炎的另一个论据。同时，椎旁组织炎症变化的严重程度仍不明确。这种情况通常不是脊椎炎的特征。通常情况下，与周围软组织相比，椎体受到的影响更严重。此外，患者否认食管受到过任何创伤，这（食管创伤）可能是造成瘘管的原因之一。

椎旁脓肿与食管之间有瘘管相通（瘘管直径达5 mm），这些都是支持食道原发性病变的其他证据。内窥镜检查显示了，有食管憩室，食管壁完好无损（没有炎症过程）。瘘管内壁为食管上皮。此外，患者的疼痛综合征与进食有关。从腰部瘘管流出的分泌物看起来像是刚吃过的食物或饮料。

由于病程较长，无法可靠地确定原发病程。考虑到所获得的数据，我们可以推断原发病变仍然是食

管穿孔，脊椎炎和椎旁脓肿是后来发展起来的。虽然患者否认食管外伤的事实，但内窥镜检查结果的最大特征是因食入异物（鱼骨吗？）而导致的食管外伤。

结论

因此，病理过程（食道瘘）的病因在最初阶段并未查明。患者最初住院期间所采取的治疗措施（外科手术和抗生素治疗）都是对症治疗。

大量的现代成像和外科技术并不能否定详细的病史采集和与临床表现的相关性。

当适当的治疗无效时，应对先前确定的诊断进行严格评估（先前的诊断是否符合诊断标准）。

在做出最终结论之前，必须进行鉴别诊断，系统地评估可能的替代诊断。

我们不应忘记经常出现的逻辑错误，即“在这之后，意味着因为这”的推论（拉丁语post hoc，意为因果关系ergo propter hoc）。当时间接近被视为因果关系时，这会导致错误的推论。

ADDITIONAL INFORMATION

Funding source. This article was not supported by any external sources of funding.

Competing interests. The authors declare that they have no competing interests.

Authors' contribution. All authors made a substantial contribution to the conception of the work, acquisition, analysis, interpretation of data for the work, drafting and revising the work, final approval of the version to be published and agree to be accountable for all aspects of the work. V.A. Zarya — collecting material, writing the article; P.V. Gavrilov — concept and design of the work, final editing; M.E. Makogonova — analysis of the data obtained, writing the text; A.R. Kozak — collecting material, writing the article; A.A. Vishnevskiy — concept and design of the work, final editing.

Consent for publication. Written consent was obtained from the patient for publication of relevant medical information and all of accompanying images within the manuscript in Digital Diagnostics Journal.

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ

1. Мушкин А.Ю., Вишневский А.А. Клинические рекомендации по диагностике инфекционных спондилитов (проект для обсуждения) // Медицинский альянс. 2018. № 3. С. 65–74.
2. Fowler V.G., Justice A., Moore C., et al. Risk factors for hematogenous complications of intravascular catheter-associated *Staphylococcus aureus* bacteremia // Clin Infect Dis. 2005. Vol. 40, N 5. P. 695–703. doi: 10.1086/427806
3. Lu Y.A., Hsu H.H., Kao H.K., et al. Infective spondylodiscitis in patients on maintenance hemodialysis: A case series // Ren Fail. 2017. Vol. 39, N 1. P. 179–186. doi: 10.1080/0886022X.2016.1256313
4. Choi K.B., Lee C.D., Lee S.H. Pyogenic spondylodiscitis after percutaneous endoscopic lumbar discectomy // J Korean Neurosurg Soc. 2010. Vol. 48, N 5. P. 455–460. doi: 10.3340/jkns.2010.48.5.455
5. Hsieh M.K., Chen L.H., Niu C.C., et al. Postoperative anterior spondylodiscitis after posterior pedicle screw instrumentation // Spine J. 2011. Vol. 11, N 1. P. 24–29. doi: 10.1016/j.spinee.2010.10.021
6. Hanci M., Toprak M., Sarioğlu A.C., et al. Oesophageal perforation subsequent to anterior cervical spine screw/plate fixation // Paraplegia. 1995. Vol. 33, N 10. P. 606–609. doi: 10.1038/sc.1995.128
7. Orlando E.R., Caroli E., Ferrante L. Management of the cervical esophagus and hypopharynx perforations complicating anterior cervical spine surgery // Spine. 2003. Vol. 28. P. E290–E295. doi: 10.1097/00007632-200308010-00023
8. Pompili A., Canitano S., Caroli F., et al. Asymptomatic esophageal perforation caused by late screw migration after anterior cervical plating:

Report of a case and review of relevant literature // *Spine*. 2002. Vol. 27. P. E499–E502. doi: 10.1097/00007632-200212010-00016

9. Janssen I., Shibani E., Rienmüller A., et al. Treatment considerations for cervical and cervicothoracic spondylodiscitis associated with esophageal fistula due to cancer history or accidental injury: A 9-patient case series // *Acta Neurochir (Wien)*. 2019. Vol. 161, N 9. P. 1877–1886. doi: 10.1007/s00701-019-03985-3

10. Fonga-Djimi H., Leclerc F., Martinot A., et al. Spondylodiscitis and mediastinitis after esophageal perforation owing to a swallowed

radiolucent foreign body // *J Pediatr Surg*. 1996. Vol. 31, N 5. P. 698–700. doi: 10.1016/s0022-3468(96)90677-6

11. Wadie G.M., Konefal S.H., Dias M.A., McLaughlin M.R. Cervical spondylodiscitis from an ingested pin: A case report // *J Pediatr Surg*. 2005. Vol. 40, N 3. P. 593–596. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2004.11.023

12. Van Ooij A., Manni J.J., Beuls E.A., Walenkamp G.H. Cervical spondylodiscitis after removal of a fishbone. A case report // *Spine (Phila Pa 1976)*. 1999. Vol. 24, N 6. P. 574–577. doi: 10.1097/00007632-199903150-00015

REFERENCES

1. Mushkin AYu, Vishnevsky AA. Clinical recommendations for the diagnosis of infectious spondylitis (draft for discussion). *Medical Alliance*. 2018;(3):65–74. (In Russ).

2. Fowler VG, Justice A, Moore C, et al. Risk factors for hematogenous complications of intravascular catheter-associated *Staphylococcus aureus* bacteremia. *Clin Infect Dis*. 2005;40(5):695–703. doi: 10.1086/427806

3. Lu YA, Hsu HH, Kao HK, et al. Infective spondylodiscitis in patients on maintenance hemodialysis: A case series. *Ren Fail*. 2017;39(1):179–186. doi: 10.1080/0886022X.2016.1256313

4. Choi KB, Lee CD, Lee SH. Pyogenic spondylodiscitis after percutaneous endoscopic lumbar discectomy. *J Korean Neurosurg Soc*. 2010;48(5):455–460. doi: 10.3340/jkns.2010.48.5.455

5. Hsieh MK, Chen LH, Niu CC, et al. Postoperative anterior spondylodiscitis after posterior pedicle screw instrumentation. *Spine J*. 2011;11(1):24–29. doi: 10.1016/j.spinee.2010.10.021

6. Hanci M, Toprak M, Sarioğlu AC, et al. Oesophageal perforation subsequent to anterior cervical spine screw/plate fixation. *Paraplegia*. 1995;33(10):606–609. doi: 10.1038/sc.1995.128

7. Orlando ER, Caroli E, Ferrante L. Management of the cervical esophagus and hypopharynx perforations complicating

anterior cervical spine surgery. *Spine*. 2003;28:E290–E295. doi: 10.1097/00007632-200308010-00023

8. Pompili A, Canitano S, Caroli F, et al. Asymptomatic esophageal perforation caused by late screw migration after anterior cervical plating: Report of a case and review of relevant literature. *Spine*. 2002;27:E499–E502. doi: 10.1097/00007632-200212010-00016

9. Janssen I, Shibani E, Rienmüller A, et al. Treatment considerations for cervical and cervicothoracic spondylodiscitis associated with esophageal fistula due to cancer history or accidental injury: A 9-patient case series. *Acta Neurochir (Wien)*. 2019;161(9):1877–1886. doi: 10.1007/s00701-019-03985-3

10. Fonga-Djimi H, Leclerc F, Martinot A, et al. Spondylodiscitis and mediastinitis after esophageal perforation owing to a swallowed radiolucent foreign body. *J Pediatr Surg*. 1996;31(5):698–700. doi: 10.1016/s0022-3468(96)90677-6

11. Wadie GM, Konefal SH, Dias MA, McLaughlin MR. Cervical spondylodiscitis from an ingested pin: A case report. *J Pediatr Surg*. 2005;40(3):593–596. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2004.11.023

12. Van Ooij A, Manni JJ, Beuls EA, Walenkamp GH. Cervical spondylodiscitis after removal of a fishbone. A case report. *Spine (Phila Pa 1976)*. 1999;24(6):574–577. doi: 10.1097/00007632-199903150-00015

AUTHORS' INFO

* **Pavel V. Gavrilov**, MD, Cand. Sci. (Med.);
address: 2-4 Ligovskiy avenue, 191036 Saint Petersburg, Russia;
ORCID: 0000-0003-3251-4084;
eLibrary SPIN: 7824-5374;
e-mail: spbniifrentgen@mail.ru

Valeriya A. Zarya;
ORCID: 0000-0001-7956-3719;
e-mail: zariandra@mail.ru

Marina E. Makogonova, MD, Cand. Sci. (Med.);
ORCID: 0000-0001-6760-2426;
eLibrary SPIN: 6342-8967;
e-mail: MakogonovaME@gmail.com

Andrey R. Kozak, MD, Cand. Sci. (Med.);
ORCID: 0000-0002-3192-1430;
e-mail: andrkozak@mail.ru

Arkadiy A. Vishnevskiy, MD, Dr. Sci. (Med.);
ORCID: 0000-0002-9186-6461;
eLibrary SPIN: 4918-1046;
e-mail: vichnevsky@mail.ru

ОБ АВТОРАХ

* **Гаврилов Павел Владимирович**, канд. мед. наук;
адрес: Россия, 191036, Санкт-Петербург, Лиговский пр-т, д. 2-4;
ORCID: 0000-0003-3251-4084;
eLibrary SPIN: 7824-5374;
e-mail: spbniifrentgen@mail.ru

Заря Валерия Алексеевна;
ORCID: 0000-0001-7956-3719;
e-mail: zariandra@mail.ru

Макогонова Марина Евгеньевна, канд. мед. наук;
ORCID: 0000-0001-6760-2426;
eLibrary SPIN: 6342-8967;
e-mail: MakogonovaME@gmail.com

Козак Андрей Романович, канд. мед. наук;
ORCID: 0000-0002-3192-1430;
e-mail: andrkozak@mail.ru

Вишневский Аркадий Анатольевич, д-р мед. наук;
ORCID: 0000-0002-9186-6461;
eLibrary SPIN: 4918-1046;
e-mail: vichnevsky@mail.ru

* Corresponding author / Автор, ответственный за переписку