

Intralobar Pulmonary Sequestration*

—수술 1 예 보고—

양기민* · 안금환*** · 김용일***

=Abstract=

Intra-lobar Pulmonary Sequestration

—A Case Report—

Ki-Min Yang, M. D., * Geung Hwan Ahn, M. D., and Yong Il Kim, M. D.

Intralobar pulmonary sequestration is rare congenital lung disease, in which systemic artery supplies a congenitally cystic portion of the lung.

Patient was 19 years old male whose complaints were fever, chest pain and sputum. Chest film showed a round homogenous density and air-fluid level at the left lower lung field and on bronchogram, contrast materials did not enter the abscess pocket.

By operation multiple lung abscess pockets at the lower lobe were noted. An aberrant artery, measuring 0.4cm. in diameter and 2 cm. in length, arised from the aorta just above the diaphragm and entered the posterior basal segment of left lower lobe.

After division of the artery, left lower lobectomy was done and postoperative hospital course was uneventful.

Pathologic findings were multiple lung cysts which were not connected to the left lower lobe bronchi and an aberrant artery which showed elastic lamillation and mild sclerotic change.

서 론

Intralobar pulmonary sequestration 은 임상에서 드물게 보는 질환으로 1777년 Huber¹⁾에 의하여 처음 보고 되었으며 1947년 Pryce²⁾에 의하여 자세히 기술되었다.

Intralobar pulmonary sequestration 은 전신동맥에서 혈액공급을 받는 폐의 선천성 기형이다^{8, 9)}.

Intralobar pulmonary sequestration 은 주로 폐하엽에

* 본 논문의 요지는 1971년 5월 29일 제3차 대한흉부외과학회 학술대회에서 발표하였음.

** 서울대학교 의과대학 흉부외과학교실 <지도 이영균 교수>

*** 병리학교실

* Department of Thoracic Surgery, College of Medicine, Seoul National University (Director: Prof. Yung-Kyoon Lee, M. D.)

다발하며 폐하엽과 동일늑막으로 싸여 있으며 그 동맥혈은 폐정맥으로 유입한다.

Extralobar sequestration 은 주로 횡경막밑이나 횡경막과 폐하엽 사이에 호발하며 자체의 늑막으로 싸여있고 기정맥이나 폐정맥으로 유입한다. 일반적으로 기침, 오한, 고열, 객혈, 흉부동통등의 증상을 나타내어 일반 폐질환과 감별하기 힘들며 흉부외과 의사들에게는 수술 중 이상동맥의 존재를 인지하지 못하면 치명적인 출혈을 일으킬 수 있으므로 수술전 확진이 중요하다.^{3, 12, 13, 14)}

증 례

19세된 남자로서 고열, 기침 및 객담을 주소로하여 입원하였다. 입원 약 1개월 전부터 상기증상이 출현하

였으며 입원 3일전에는 심한 고열과 좌측 흉부동통을 동반하였으며 객혈이나 화농성격담은 없었다.

가족력 및 과거력은 특기할만한 사항이 없다.

혈압, 맥박, 체온은 정상이 었다.

이학적소견상 좌측 흉하부 전체에서 호흡음이 감소되었으며 타진상 탁음을 수반하였고 호흡잡음도 없었으며 다른 특기할만한 소견도 없었다.

흉부촬영상 좌측하엽에 어른주먹 크기의 homogenous density 와 air-fluid level 을 관찰할 수 있었고 기관지 조영상 기관지에는 이상이 없었으며 조영제가 농양부위로 진입하지 않았다.

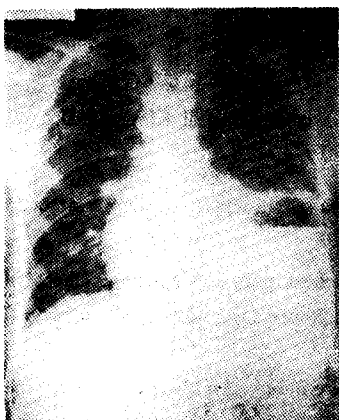


Fig. 1. 술전흉부촬영소견



Fig. 2. 술전흉부측면소견

폐농양의 진단하에 개흉하였다. 수술소견은 좌측하엽에 다발성 폐농양 및 횡경막 직상부의 대동맥으로부터 좌측 하엽의 후기저구역(posterior basal segment)으로

분지하는 길이 약 2 cm 직경 약 0.4 cm. 되는 이상동맥을 관찰하였다.

수술은 이상동맥을 분단결찰하고 좌측폐 하엽절제술을 시행하였으며 환자는 합병증없이 완쾌 퇴원하였다.



Fig. 4. 술후흉부촬영소견

병리학적 소견

절제된 좌측하엽의 중량은 250 Gm. 이었고 크기는 12×10×5cm 이었다. 흉막은 0.3 cm. 두께의 미만성 섬유화를 보였다. 후기저구역으로 진입하는 0.4 cm. 직경의 이상동맥이 변연부에서 관찰되었으며 이는 이중으로 결찰되어 있었다.

이 이상동맥이 분포하고 있는 후기저 및 외기저구역은 무수한 낭구조를 함유하고 있었으며 이들 낭구조와 하엽 기관지와의 연결은 육안적으로 관찰되지 않았다. 그러나 낭상구조의 내강은 회갈색의 점액양 물질로 충만되었으며 그 내면은 과립성이었다. 배설된 조직은 적갈색 내지 회갈색의 경결성 병변을 보였고 낭상구조간에서 주로 관찰되었다. 상술한 소견이외에 4개의 큰 농양이 산재성으로 관찰되었고 그 크기는 6×5×4 cm. 에 이르렀다. 농양 주위 폐조직은 반상염성경결을 나타내었다.

병리조직학적으로 폐하엽에서 관찰된 낭상구조들은 심히 확장된 기관지로 확인되었으며 이들 내강은 점액성 분비물과 염성 삼출물로 충만되었다. 주위 폐조직은 만성 간질성폐염 내지 기관지 불안전 폐쇄에 수반되는 무기폐성 조직상과 섬유화를 나타내었다. 이들은 부분적으로 기질화되고 심한 임파구침집을 수반하였다. 후기저구역의 이상동맥은 탄력성동맥의 조직상을 나타내므로 대동맥기원을 제시하였으며 탄력섬유의 충상화 및 경미한 동맥경화증이 Verhoff 염색에 의해 확인되었다.

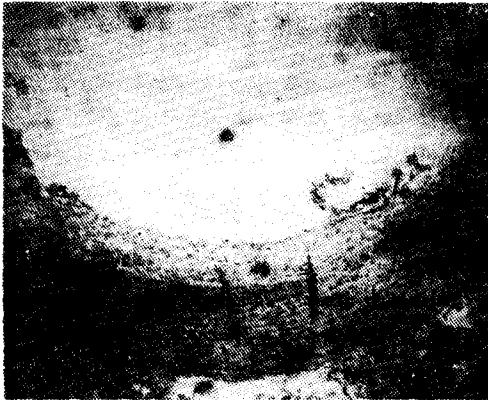


Fig. 4. Photomicrograph of accessory pulmonary artery to show well developed medial elastic structure. H. & E. $\times 100$

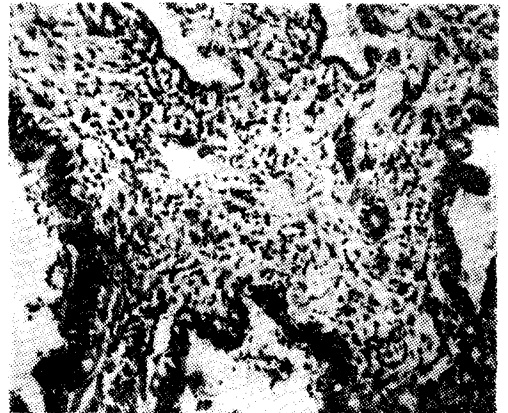


Fig. 7. Lung cysts lined by respiratory epithelium. H. & E. $\times 250$

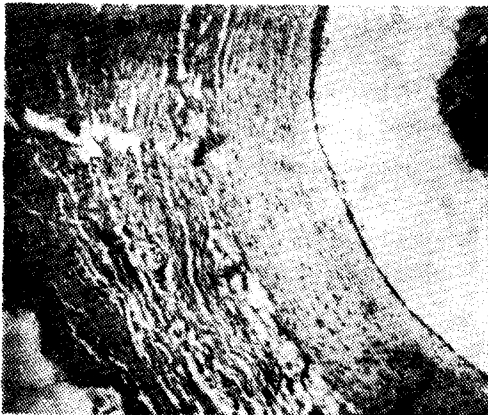


Fig. 5. A branch of accessory pulmonary artery and a cyst in the left lower corner. H. & E. $\times 100$



Fig. 6. A portion of sequestered lung showing multiple cysts. H. & E. $\times 100$

육안적으로 농양이라고 이해되었던 낭상구조는 심히 확장된 기관지와 이에 합병된 진행성 급성 화농성 및 만성 기질화성염증의 소견을 보였다.

고 안

본 질환의 발생기전은 Pryce²⁾가 "Capture Theory"를 제창한후 여러설이 있으나^{1), 4), 10)} 확실치않다.

발생빈도는 Cole¹⁾ 등은 개흉술 460예중 5예(1.1%), Pryce²⁾는 336예중 6예(1.8%), Allen³⁾ 등은 385예중 3예(0.8%)라고 보고 하였다.

남녀비는 남자가 많으며 Bruwer⁴⁾ 등은 2:1, Allen³⁾ 은 3:2라고 하였다.

이상동맥의 출현은 좌측이 우측보다 흔하며^{3), 4)} Bruwer⁴⁾ 등이 경험한 47예중 좌측이 21예, 우측이 11예, 양측이 1예, 기재불명이 14예 었으나 Bruwer⁴⁾ 등이 문헌상 보고된 45예를 종합하여 좌측이 17예 우측이 19예 불기재가 9예로 우측이 좌측보다 오히려 많다.

케로가는 이상동맥은 대동맥 또는 대동맥 분지에서 기시하며¹⁾ Finley 와 Maier¹⁵⁾ 등이 문헌상 보고된 67예를 종합보고하여 이상동맥이 폐문보다 상부에서 기시한 예가 25예(37.3%)였고, 42예(62.7%)가 폐문보다 하부에서 기시하였다.

폐문상부군중 75%가 심장혈관계 기형을 동반하였으나 폐기형은 없었고 폐문하부군에서는 16%에서 심장혈관계 기형을 동반하였으며 80%에서 폐의 기형을 동반하였다.

Wall 과 Lucido⁵⁾ 등은 100예의 이상동맥중 흉부대동맥에서 기시한것이 87예 횡경막 하부 대동맥에서 기시한것이 13예라 하였다.

본 질환은 하엽 특히 내기저구역에 호발하나^{5), 11)}

Written⁶⁾ 등은 상엽에 발생한 5예를 보고하였다.

본 질환의 감염발생 원인은 확실히 규명되지는 못하였으나³⁾ 기관지와 낭이 연결되어 있는 경우^{3), 5)} 및 폐염으로 인한 혈액성 전파³⁾라고 하였다.

Cole¹⁾이 보고한 5예의 pulmonary sequestration 중 2예에서 횡경막 탈출증을 동반하였으며 그외에⁴⁾ Diaphragmatic eventration, 폐동정맥루, 폐하엽이나 중엽의 결손, 우측폐문부동맥결손등을 보고한바있다.

Zelesky¹¹⁾ 등은 단성 재발성 폐렴이 폐하엽에 있으며 다발성 낭소견을 보이고 기관지 조영에서 조영제가 낭으로 진입하지 않으면 본 질환을 의심하라고 하였으며 대동맥조영이나 선택적동맥조영을 하여^{3), 11)} 조영제가 동맥으로부터 폐로진입하는것을 보아 확진된다고 하였다.

기관지경 소견은 진단에 도움이 되지 못한다.^{3), 4), 5), 8), 11)}

이상동맥은 조직에 영양을 주고 폐동맥과는 연결되어 있지 않으며 폐정맥으로 유입되고 기관지는 Sequestered portion 과 연결되어있지 않다.⁵⁾

낭속에는 흔히 점액성 물질이 있으며 Sequestered area 에는 Anthracotic pigmentation 이 없다.⁸⁾

결 론

19세 남자에서 폐농양의 임상진단하에 수술을 실시한 예에서 이상동맥이 대동맥에서 좌측 폐하엽에 진입한 다발성 낭성 폐질환을 나타낸 intrapulmonary sequestration 1예를 보고 하였다.

REFERENCES

- 1) Cole, F. H., Alley, F. H., Jones R. S.: *Aberrant systemic arteries to the lower lung. Surg. Gynec. & Obst.* 93:589, 1951.
- 2) Pryce, D. M., Sellors, T. H., Blair, L. C.: *Intralobar sequestration of lung associated with an abnormal pulmonary artery. Brit. J. Surg.* 35:18, 1947.
- 3) Ribaud C. Rossi P. Comer J.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration demonstrated by aortography and selective arteriography of the anomalous*

vessel: Ann. Intern. Med. 64:381, 1966.

- 4) Bruwer, A. J., Clagett, O. T., McDonald J.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration Amer. J. Roentgen* 71:751, 1954.
- 5) Wall, C. A., Lucido, J. L.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration. Surg. Gynec. & Obst.* 103:701, 1956.
- 6) Witten, D. M., Clagett, O. T., Woolner, L. B.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration involving the upper lobes. J. Thoracic & Cardiovasc. Surg.* 43:523, 1962.
- 7) Gebauer, P. W., Mason, C. B.: *Intralobar pulmonary sequestration associated with anomalous pulmonary vessels: a nonentity Dis. Chest* 35:282, 1959.
- 8) Cooley, J. C.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration: A report of three cases. Dis. Chest* 42: 95, 1962.
- 9) Culliner, M. M., Wall, C. A.: *Collateral ventilation in intrapulmonary sequestration. Dis. Chest* 47: 118, 1965.
- 10) Smith, R. A.: *Controversial aspects of intralobar sequestration of lung. Surg. Gynec. & Obst.* 111: 57, 1962.
- 11) Zelesky, M. N., Janis M, Bernstein R., Blatt C., Lin A., Meng., C. H., *Intralobar bronchopulmonary sequestration with bronchial communication. Chest* 50:266, 1971.
- 12) Bruwer, A. J.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration. Amer. J. Surg.* 89:1035, 1955.
- 13) Gallagher, P. G., Lynch, J. P., Christian, H. J.: *Intralobar bronchopulmonary sequestration of lung. New Eng. J. Med.* 257:64, 1957.
- 14) Gerard, F. P., Lyons, H. A.: *Anomalous artery in intralobar bronchopulmonary sequestration. Report of two cases—demonstrate by angiography. New Eng. J. Med.* 259:662, 1958.