

기관지 식도루를 동반한 내엽형 폐격리증 -1예 보고-

공 현 우* · 김 원 곤* · 조 규 석* · 박 주 철* · 유 세 영*

- Abstract -

Intralobar Pulmonary Sequestration Communicating with the Esophagus -1 Cases Report-

H.W. Kong, M.D.* , W. K. Kim, M.D.* , K. S. Cho, M.D.*
J.C. Park, M.D.* , S. Y. Yoo, M.D.*

We have experienced a case of intralobar pulmonary sequestration communicating with the esophagus.

A 24 year old female patient was admitted of chronic cough related to food, purulent sputum and left lower chest pain. Esophagography and bronchography revealed bronchoesophageal fistula and bronchiectasis with cystic lesion of the left lower lobe. There was multiple anomalous feeding vessels arising from the intercostal arteries and no draining systemic vein on aortography. Division of the bronchoesophageal fistula and left lower lobectomy was performed.

Communication with the esophagus is rarely associated with intralobar pulmonary sequestration and esophagogram is useful method of diagnosis for this communication.

서 론

폐격리증은 비정상적인 체동맥으로부터의 혈액공급을 받는 비발육의 폐조직을 갖는 비교적 드문 선천성 질환으로, 내엽형과 외엽형으로 나눌 수 있다. 내엽형 폐격리증은 외엽형에 비해 동반되는 기형이 드물어 독립된 질환으로 존재하는 경우가 많으며^{1,3,5)}, 특히 상부위 장관과의 교통은 매우 드물게 나타난다^{3-5,8)}. 본 경희대학교 의과대학 흉부외과 교실에서는 기관지

식도루를 동반한 내엽형 폐격리증 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

24세 여자환자로 해수과 화농성 객담 및 좌하흉부동통을 주소로 내원하였다. 과거력상 유아기로부터 유동성 음식물을 섭취한 후의 산해 및 반복되는 폐렴이 있었으며, 내원 3년전에는 폐농양의 진단하에 입원치료를 받았었다.

이학적 검사상 좌하폐야의 호흡음이 감소되어 있으면서 약간의 습성수포음이 들렸으며, 혈액검사상 백혈구수 9200/mm³ 호중구 92%로 약간의 호중구증가가 있었다. 평면흉부 X-선 소견은 특별한 이상이 없

* 경희대학교 의과대학 흉부외과학교실
* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery,
School of Medicine, Kyung-Hee University
1988년 11월 21일 접수

었다.

식도조영술 및 기관지조영술을 시행하여 좌하엽 상부구역과 식도간의 기관지 식도루를 발견하였으며(그림 1), 좌하엽의 기관지확장 및 낭포성 병변을 관찰할 수 있었다(그림 2). 대동맥 조영술에서는 여러개의 늑간동맥이 폐격리조직에 혈액공급을 하고 있었으며(그림 3), 체정맥으로의 정맥환류는 발견되지 않았다.

개흉하여 기관지 식도루절제 및 좌하엽절제술을 시행하였으며, 술후 기관지 동맥의 파열에 의한 출혈로 재개흉하였고 2차 수술후에는 합병증없이 퇴원하였다.



Fig. 1. Esophagography showing bronchoesophageal fistula

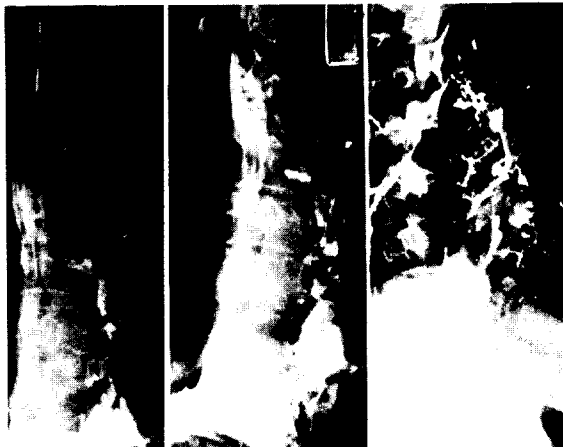


Fig. 2. Bronchography showing bronchiectasis and cystic changes of the left lower lobe

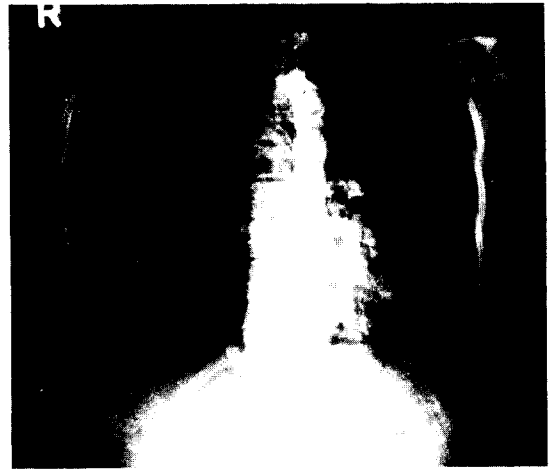


Fig. 3. Aortography showing anomalous systemic artery

고 안

폐격리증은 비정상적인 체동맥으로부터 혈액공급을 받는 비분화된 폐조직을 갖는 선천성 질환으로 Seguestration의 어원은 라틴어의 Seguestrare 즉 분리라는 뜻이며, Dryre에 의해 처음 명명되었다^{1,3,8)}. 그는 폐격리증을 정상폐조직과 공동늑막을 갖는 내엽형과 고유늑막을 갖는 외엽형으로 분류하였는데 간혹 양형이 공존하는 형과 Hybrid형도 나타난다고 한다^{12,13,15)}. 폐격리증의 발생기전은 아직 명확하게 밝혀지지 않고 있으며, 많은 학설들이 제시되어 왔다^{1,4,12)}.

폐격리증은 선천성 폐기형의 0.15~6.4%에서 나타난다고 하며¹³⁾, O'Mara 등¹⁰⁾ Shamji 등¹⁴⁾은 폐절제술을 받은 성인의 약 0.1%를 차지한다고 하였다. 성별에 따른 차이는 Ferguson³⁾ Shamji 등¹⁴⁾에 의하면 내엽형에서는 성별의 차이가 없고, 외엽형에서는 4:1로 남자에서 많이 발생한다고 하였다. Savic 등¹³⁾에 의하면 내엽형 격리증의 85%가 하엽의 후기저구역에 발생하고 하엽의 후기저구역외의 구역에서 12%, 상엽에서 2%, 중엽에서 0.25%가 발생한다고 하였다. 또한 Savic 등¹³⁾ Shamji 등¹⁴⁾은 내엽형 폐격리증의 60%정도가 좌측에서 발생한다고 하였다.

폐격리증에 동반되는 기형중 상부위장관과의 교통은 매우 드물게 나타나는데³⁻⁵⁾ Gerle 등⁴⁾, Heithoff 등⁵⁾은 Eppinger의 common Developmental Theory를 확장하여 내엽형과 외엽형 폐격리증의 발생을 설명하면서 Foregut과 Accessory Lung Bud와의 연결이

발생과정에서 완전히 분리되지 않으면 Patent Communication, Fibrous Stark, Vessels only, Diverticulum, Fibrous Stark and Bronchid or Esophageal Duplication 및 Duplication cyst 등으로 나타날 수 있다고 하면서 폐격리증을 Bronchopulmonary Foregut Malformation으로 부르자고 주장하였다^{4,5,15}).

Vavic 등¹³)은 540예의 폐격리증을 보고하면서 2예의 기관지 식도루를 보고하였는데 2예 모두 외엽형 폐격리증이었으며, Ferguson³⁾ Shamji 등¹⁴⁾에 의하면 식도와의 교통은 내엽형에서는 매우 드물고 외엽형에서는 내엽형에 비해 좀더 자주 관찰된다고 하였다.

폐격리조직과 상부위장관과의 교통부위는 대부분에서 하부식도 및 Cardioesophageal Junction이며, Stomach Fundus, midesophagus, upper Esophagus 와도 교통할 수 있다고 한다^{4,5}).

상부위장관과의 교통이 있는 폐격리증의 임상증상은 음식물의 섭취와 관련된 만성해수, 반복되는 폐렴, 호흡장애가 흔히 나타나며, 드물게는 음식물의 토출, 각혈, 빈혈 등의 증상이 나타나기도 하며, 동반되는 기형이 존재하는 경우에는 이들 기형의 증상도 나타나게 된다⁵).

상부위장관과의 교통을 진단하기 위하여는 식도조영술이 가장 유용한 방법이며 기관지조영술은 그다지 진단적이지 않아도 한다^{4,5}). 폐격리증을 확진할 수 있는 대동맥조영술은 비정상적인 체동맥의 수, 크기, 위치를 알 수 있어 시행하는 것이 좋다고 하나^{1,3,8,14}), Ferguson³⁾, Lindesmith 등⁸⁾은 폐격리증의 특징적인 평면흉부 X-선 소견과 발생부위 및 임상증상에 의하여 폐격리증을 일단 의심해 보는 것이 성공적인 수술을 가능케 하는 중요한 진단적 단서이므로 대동맥 조영술을 폐격리증이 의심되는 모든 환자에서 시행할 필요는 없다고 하였으며, Savic 등¹³⁾은 대동맥조영술을 시행한 39예중 3예(7.7%)에서 비정상적인 체동맥을 관찰하지 못하였다고 한다. 최근에는 초음파검사⁶⁾, 조영제를 사용한 컴퓨터 단층촬영^{1,2,9)}, 핵방사선 동위원소를 사용한 동맥조영술⁷⁾로 진단이 가능하였다는 보고도 있다.

내엽형 폐격리증의 치료에 대하여 Ferguson³⁾은 증상이 있는 환자는 수술전 항생제 투여로 임상증상을 완화시킨 후 조심스러운 비정상 체동맥의 결찰과 분리 및 폐엽절제술을 시행하는 것이 최선책이라고 하였고, Roe 등¹¹⁾은 증상이 없는 경우에도 감염과 그에 따른 정상폐조직의 파괴를 막기 위하여 예방적인 목적

으로 폐격리부를 절제하는 것이 바람직하다고 주장하였다. 수술은 대부분에서 하엽절제술을 시행하여, 구역절제술, 격리구역절제술, 중하엽절제술, 전폐절제술 등을 시행하기도 한다¹³⁾.

결 론

기관지 식도누출 동반한 내엽형 폐격리증 1예를 성공적으로 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCE

1. 광영태, 신 경, 정원상, 문병탁, 이영목, 이명희, 심영목, 박용구 : 폐격리증-2예 보고 및 대한흉부외과 학회지에 발표된 19예의 문헌고찰. 대한흉부외과 학회지 20 : 829, 1987
2. Baker EL, Gore RM and Moss AA: *Retroperitoneal pulmonary sequestration: Computerized tomographic findings. AJR 138:956. 1982*
3. Ferguson JB: *Congenital lesions of the lungs and emphysema in Gibbon's Surgery of the chest by Sabiston DC and Spencer FC, 4th ed. p.686, WB Saunders company, Philadelphia. 1983*
4. Gerle RD, Jaretzki A, Ashley CA and Berne AS: *Congenital bronchopulmonary foregut malformation; Pulmonary sequestration communicating with gastrointestinal tract. N Engl J Med 278:1413, 1968*
5. Heithoff KB, Sane SM, Willians HJ, Jarvis CJ, Carter J, Kane P and Brennom W: *Bronchopulmonary foregut malformations: A unifying etiologic concept. AJR 126:46, 1976*
6. Jaffe MH, Bank ER, Silver TM and Bowerman RA: *Pulmonary sequestration; Ultrasonic appearance. J Clin Ultrasound 10:294, 1982*
7. Kobauashi Y, Abe T, sato A, Nagai Y and Ibukiyama C: *Radionuclide angiography in pulmonary sequestration. J Nucl med 26:1035, 1985*
8. Lindesmith CG, and Wells WJ: *Congenital lesions of the lung. in General thoracic surgery by Shiels TW, 2nd ed. p.671, Lea & Febiger, Philadelphia, 1988*
9. Millar PA, Willianson BRJ, Minor JR and Buschi AJ: *Pulmonary sequestration: Visualization of the*

- feeding artery by CT. *J Comp Assist Tomogr* 6:828, 1982
10. O'Mara CS, Baker RR and Jeyasingham K: *Pulmonary sequestration. Surg Gynecol Obstet* 147:609, 1978
 11. Roe JP, Mack JW and Shirley JH: *Bilateral pulmonary sequestrations. J Thorac Cardiovasc Surg* 80:8, 1980
 12. Sade RM, Clouse M and Ellis FH: *The spectrum of pulmonary sequestration. Ann thorac Surg* 18:643, 1974
 13. Savic B, Birtal FJ, Tholen W, Funke HD and Knoche R: *Lung sequestration: Report of seven cases and review of 540 published cases. Thorax* 34:96, 1979
 14. Shamji FM, Sach HJ, Perkins DG: *Cystic diseases of the lungs. Surg Clin N Am* 68:581, 1988
 15. Zumbaro GL, Treasure RL, Seitter GS, Strevey TE, Brott W and Green DC: *Pulmonary sequestration: A broad spectrum of bronchopulmonary forgut abnormalities. Ann Thorac Surg* 20:161, 1975