

성인에서 발견된 선천성 식도-기관지루 수술치험

-1예 보고-

최명석* · 김성준* · 임진수* · 최형호* · 장정수*

-Abstract-

Congenital Bronchoesophageal Fistula without Esophageal Atresia in Adult

-A case report-

M. S. Choi, M.D.*, S. J. Kim, M.D.*, J. S. Im, M.D.*

H. H. Choi, M.D.*, J. S. Jaung, M.D.*

Congenital bronchoesophageal fistula is a rare anomaly that can appear in adult life uncommonly. There was a largest review that include 100 cases in the literature. In our case, he was 48 years old male patient who admitted for chronic coughing and recurrent lobar pneumonia on the right lower lobe since 10 years old. We could confirmed the fistular preoperatively by barium swallow examination and performed division of the fistula. The patient's postoperative course was unremarkable.

According Braimbridge's classification, it was belonged to the type II.

기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

서 론

성인에서 발견되는 식도폐쇄를 동반하지 않은 선천성 식도-기관지루공은 그 빈도가 매우 드물며 금년에 Risher¹²⁾에 의해서 100예의 문헌고찰이 이루어졌으며 국내에서도 최근에 비교적 많은 예가 보고되고 있다^{20,21,22)}. 이 질환의 원인에 대해서는 여러가지 가설이 있으나 태생 28일째에 식도와 기관지가 분리되는데 이때 식도-기관지 사이의 접착관계가 지속되어 발생하는 것으로 생각된다^{8,9,10)}.

본 조선대학교 의과대학 흉부외과에서는 성인에서 발견된 선천성 식도-기관지루공 1예를 수술치험하였

증 례

환 자 : 배○○ 48세 남자

주 소 : 유동식 연하후 발생하는 발작적 기침 및 자주 재발하는 폐염

병 력 : 본 환자는 10세때부터 유동식 후 심한 발작적 기침이 나오고 반복되는 폐염으로 여러 병원에서 치료를 받았으나 최근에는 기침이 더 심해지면서 미열이 발생하여 본 병원에 입원하였다. 과거력상 외상, 결핵, 그리고 중격동염등은 없었다.

이학적 소견 : 환자의 전신상태는 양호하였으며, 체온 37℃, 상지혈압 120/80mmHg, 맥박수 81/분, 호흡수 18회/분 등이었다. 환자의 흉부 청진상 심음은 정상이었으나 우측 폐하부에서 호흡음 감소 및 습성 수포음을 들을 수 있었다.

* 조선대학교 의과대학 흉부외과학교실

* Department of the Thoracic & Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Chosun University
1990년 8월 29일 접수

검사 소견 : 입원시 말초혈액 검사소견상 백혈구는 12,000/mm³로 증가되어 있었으며, 심전도 검사상 1° 방실차단이 있는 것 외에는 모두 정상범위에 속하였다. 단순흉부 X-선 사진에서 우하엽폐야에 약간의 침윤이 있었으며(사진 1), 식도조영검사상 제7흉추부의 식도에서 약간 더 낮은 부위의 우하엽기관지와 식도-기관지루를 형성하고 있는 것을 볼 수 있었다(사진 2). 2주간 항생제와 거담제를 투여한 후 시행한 기관지조영사진에서는 특이한 소견을 볼 수 없었다.

수술방법 및 수술소견 : 전신마취로 제 6늑간 우후측개흉을 하였으며 식도와 우하엽분기관지 사이의 누관이 쉽게 노출되었다. 기관지측 누관개구부가 약간 더 낮게 위치하고 있었으며 식도측 직경 9mm, 기관지측 직경 4mm, 그리고 길이는 15mm정도 되었다. 주위 조직에 육안적 염증소견이나 신생물의 증거는 없었다(사진 3). 누관을 박리하여 절제한 후 식도와 기관지측 절단면을 각각 봉합한 후 식도측은 다시 벽측 늑막으로 덮어서 보강하였다.

병리소견 : 누관내면은 편평상피로 피복되어 있었으며, 근육층이 존재하였고 주위 조직에서는 종양이나 염증을 증명할 만한 특이한 소견이 없었다.

수술 후 경과 : 수술 후 4일째에 Levin관을 제거하고 7일째에 식도조영술을 실시하여 식도계실, 협착, 기관지루등의 이상소견이 없음을 확인하고(사진 4) 음식물을 경구투여하였으며, 술 후 12일째에 건강히 퇴원하였다.

고 찰

선천성 기관-식도루는 식도폐쇄가 있는 경우와 없는 경우로 나눌 수 있으며, 50%이상에서 위장관이나 심혈관계 이상이 동반되고¹⁴⁾, 식도의 근위부가 확장된 맹낭으로 되어있는 경우가 85%정도 된다¹³⁾. 선천성 기관-식도루(Tracheoesophageal fistula)와 식도-기관지루(Bronchoesophageal fistula)의 빈도는 전체 기관, 또는 기관지-식도루의 3%정도 되며¹⁵⁾, 식도역류와 흡인등이 없어 성인이 되어서야 발견되는 수가 있다^{13,16,17,21,22)}.

한 보고에 의하면 260예의 식도폐쇄가 없는 기관-식도루중 66예가 성인에서 발견되었으며, 이중 28%가 기관지와의 연결이었다¹⁸⁾. Risher 등¹²⁾이 문헌고찰하여 발표한 식도-기관지루 100예중 기관지쪽 개구



Fig. 1. Preoperative simple chest P-A showing the pneumonic infiltration on the right lower lung field.

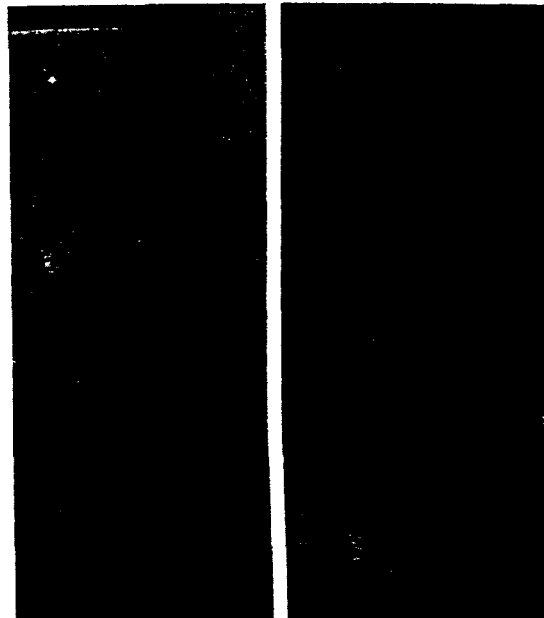


Fig. 2. Cinefluoroscopic esophagogram showing bronchoesophageal fistula between the middle third of the esophagus and segmental bronchus of the right lower lobe-superior (BI; bronchus intermedius, right E; esophagus). Arrows: fistular tract S; stomach).

부의 위치에 따른 분포에 의하면 우하엽기관지가 41예(41%)로 가장 많았다(그림 5).

또한 Smith¹¹⁾는 식도와 기관지간의 비정상적인 교통을 다음과 같이 분류하였다.

1. Benian

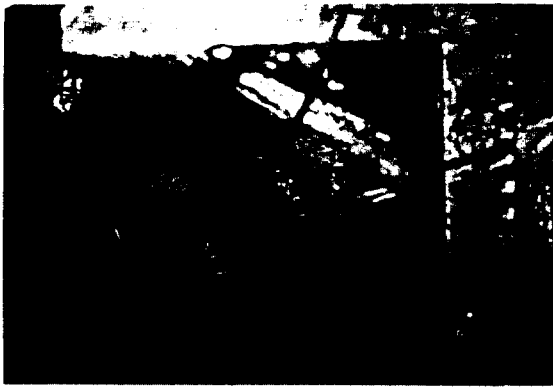


Fig. 3. Intraoperative photography from surgical exploration showing bronchoesophageal fistula. (E=esophagus ; L=lung ; arrow=fistula tract ; open arrow=right vagus nerve)

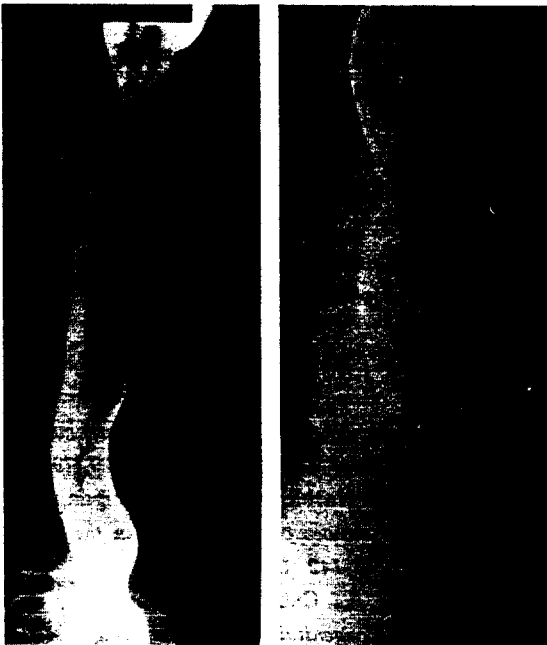


Fig. 4. There are no abnormal findings on the esophagogram which performed at 7th POD.

a : Congenital : (1) Infant, with or without esophageal atresia

(2) Adult, without esophageal atresia

b : Acquired : (1) Traumatic

(2) Inflammatory, either tuberculous or as a result of mediastinitis

2. Malignant

a : Bronchial carcinoma

b : Esophageal carcinoma

c : Primary and secondary hilar-node metastasis

기관은 태생 3mm때 원시전장(Primitive foregut)에서 출현하여 5mm때 분리되는데, 이때 기관-기관지계와 식도 사이에 접착이 계속될때 발생하게 된다^{5,6,9)}. 식도-기관지루의 선천성과 후천성의 구분은 첫째, 누관이 편평상피로 피복되어 있고 둘째, 누관벽에 근육층이 존재하며 셋째, 누관주위에 염증 또는 신생물의 증거가 없어야 한다^{4,6)}.

Braimbridge와 Keith는 식도에 병변이 없는 식도-기관지루를 다음과 같이 4종류로 분류하였으며⁴⁾, 이 중 제 2형이 가장 단순하면서 그 빈도는 가장 흔하다¹²⁾.

제 1형 : 식도쪽에 목이 큰 개실이 있고 이것이 염증을 일으켜 계속으로 뚫고 들어간 경우

제 2형 : 식도와 폐엽 혹은 폐구엽기관지 사이의 짧은 직선상의 통로를 취한 형태

제 3형 : 제 2형과 비슷하나 기관지쪽에 낭종을 형성하여 식도와 교통이 된 상태

제 4형 : 식도-기관지루의 기관지가 폐격리증의 경우인 형태

본예에서는 식도쪽 개구부의 직경이 기관지쪽 개구부 직경의 약 2배가 되는 직선상의 통로로(제 7흉추부위의 식도와 우하엽 분절기관지 사이)되어 있는 제 2형에 속하였다.

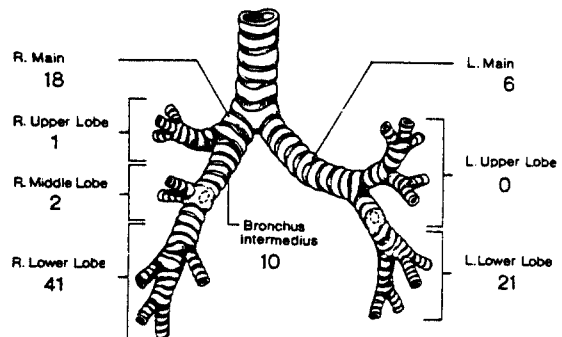


Fig. 5. Distribution of the bronchoesophageal fistula by location of the bronchial portion of fistula among the 99 cases. (From William H. Risher, Robert M. Arensman, John L. Ochsner : Congenital Bronchoesophageal Fistula. Ann. Thorac. surg., 3 : 500, 1990.)

성인이 되어 진단되거나 증상이 발현되는 것은 경한 호흡기 증상에 환자가 적응되어 늦게 병원을 방문하거나, 식도쪽 개구부가 기관지쪽 개구부보다 그 위치가 더 낮아 증상이 잘 나타나지 않거나, 처음에는 누공내에 얇은 막이 있다가 나중에 파열되거나, 또는 식도쪽 점막이 주름을 형성하여 입구를 막고 있다가 나중에 개구된다는 설명등이 있다^{1,2,3,4)}. 주증상은 객담을 동반한 기침, 각혈, 음식물 찌꺼기가 동반된 객담, 특징적으로 물을 마신후에 폐에서 수포음이 들리며(Ono's Sign), 상기도 감염증, 재발성 폐염, 폐손상, 그리고 기관지 확장증이 동반되기도 한다.

Becker등²⁾의 보고에 의하면 남녀사이에 발생빈도의 차이는 거의 없고, 치료전 증상의 기간은 6개월에서 50년까지 다양하며 평균 17년이었다. 본예에서는 치료전 증상의 기간이 37년이었다.

대개 바륨을 이용한 식도조영술로 교통로를 확인할 수 있으나 Hypaque를 이용하여 기관지 손상의 위험을 줄일 수 있다. 또한 식도영화촬영술(cineesophagography)이 가장 신빙성이 높다^{2,21,22)}. 단순흉부 X-선사진으로 동반된 폐병변을 발견할 수 있으며 기관지 확장증이 의심되면 기관지 조영술을 시행한다⁷⁾. 기관지경으로 기관지측 개구부를 확인할 수 있으며, 특히 분절기관지와 누공을 형성하는 경우에는 Methylene blue용액을 식도에 넣은 후 기관지경으로 기관지측 개구부를 확인할 수 있다²²⁾.

진단이 내려지면 폐손상이 없는 경우는 누관을 단순 절찰하거나 절제후 양측 절단면을 봉합하며, 이때 식도측 절단면을 벽측늑막으로 보강하여 합병증을 줄일 수 있다. 누공이 작은 경우(내경이 3mm이하) 내시경하에서 Silver nitrate나 Sodium hydroxide로 소작시키기도 하며⁵⁾, 절제하지 않고 자동봉합기(Autosuture stapling instrument)를 이용하여 식도와 평행하게 단순봉합하기도 하는데 수술 시간이 짧고 수술부위의 손상이나 오염이 적다¹⁹⁾.

결 론

조선대학교 의과대학 흉부외과학 교실에서는 최근 성인에서 발견된 식도-기관지루 1예를 수술치험하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Becker, R.M., Lesperance, R., Despas, P., and Wilson, I.A.S. : *Congenital esophagobronchial fistula in a 62 year old woman. Chest, 69 : 110-112, 1976.*
2. Bekoe, S., Magovern, G.J., Liebler, G.A., Park, S.B., and Cushing, W.J. : *Congenital esophagobronchial fistula in the adult. Chest, 66 : 201-203, 1974.*
3. Berman, J.K., Test P.S., and McArt, B.A. : *Congenital esophagobronchial fistula in adult. J. Thorac. Surg., 24 : 493-500, 1952.*
4. Braimbridge, M.V., and Keith, H.I. : *Esophagobronchial fistula in the adult. Thorac, 20 : 226-233, 1965.*
5. Clerf, L.H. : *Esophagobronchial Fistula : report of two cases. Tr. Am. Laryng., Rhin. Otol. Soc., p.35, 1945.*
6. David, C.S. : *A congenital bronchoesophageal fistula presenting in adult life with pulmonary infection. Br. J. Surg., 57 : 398, 1970.*
7. Ong, G.B., and Kwong, K.H. : *Management of malignant esophagobronchial fistula. Surgery, 67 : 293, 1970.*
8. O'Rahilly, R., and Muller, F. : *Respiratory and alimentary relations in staged human embryos. New embryological data and congenital anomalies. Ann. Otol. Rhinol. Laryngol., 93 : 421-429, 1984.*
9. Osinowo, O., Hareley, H., and Janigan, D. : *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult. Thorax, 38 : 138-142, 1983.*
10. Salepcioglu, A., Cebeci, H., Saner, H., and Akcal, T. : *Congenital oesophageal fistula in the adult. Br. J. Surg., 64 : 581-582, 1977.*
11. Smith, D.C. : *A congenital broncho-esophageal fistula presenting in adult life without pulmonary infection. Br. J. Surg., 57 : 398-400, 1970.*
12. Risher, W.H., Arensman, R.M., and Ochsner, J.L. : *Congenital bronchoesophageal fistula. Ann. Thorac. Surg., 49 : 500-505, 1990.*
13. Black, R.J. : *Congenital tracheo-oesophageal fistula in the adult. Thorax, 37 : 61, 1982.*
14. Holden, M.P., Wooler, G.H. : *Tracheo-oesophageal fistula and oesophageal atresia : results of*

- 30 years' experience. *Thorax*, 25 : 406, 1970.
15. Salzberg, A.M. : *Congenital malformations of the lower respiratory tract : Disorders of the respiratory tract. Philadelphia, W.B. Saunders, 1983, p.183.*
 16. Holman, W.L., Vaezy, A., Postlethwait, R. W., et al : *Surgical treatment of H-type tracheoesophageal fistula diagnosed in one adult. Ann. Thorac. Surg.*, 41 : 453, 1986.
 17. Smith, B.D.Jr., Milkaelian, D.O., Cohn, H.E. : *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult. Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.*, 96 : 65, 1987.
 18. Blackburn, W.R., Amoury, R.A. : *Congenital esophago-pulmonary fistulas without esophageal atresia : An analysis of 260 fistulas in infants, children and adults. Rev. Surg.*, 23 : 153, 1966.
 19. Weissberg, D., Kaufman, M. : *Bronchoesophageal fistula in adult : congenital or acquired? [letter]. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 99 : 756-757, 1990.
 20. 김백익, 노준량 : 선천성 기관지 식도루(H자형 수술 1례 보고). *대한흉부외과학회지*, 12 : 110-112, 1979.
 21. 김주현 : 성인에서 발견된 선천성 식도-기관지루 수술치험(5례보고). *대한흉부외과학회지*, 16 : 381-385, 1983.
 22. 허 용, 강경훈, 문경춘, 김병열, 이정호, 유희성, 손진희, 박효숙 : 성인의 선천성 식도-기관지루 6예 보고. *대한흉부외과학회지*, 21 : 594-600, 1988.