

성인의 견인성 식도계실이 동반된 선천성 식도·기관지루

- 1예 보고 -

심 성 보* · 김 육 진* · 김 병 석* · 장 동 철* · 김 범 식*

- Abstract -

Congenital Esophagobronchial Fistula Associated with Esophageal Traction Diverticulum in Adult - Report of one case -

Sung Bo Sim, M.D.* , Oug Jin Kim, M.D.* , Byung Seok Kim, M.D.*
Dong Cheol Jang, M.D.* , Bum Shik Kim, M.D.*

A fistulous communication between an esophageal traction diverticulum and the tracheo-bronchial tree appears to be of rare occurrence.

This report reviews the feature of congenital esophagobronchial fistula associated with esophageal traction diverticulum.

This 38-year-old male patient suffered from coughing, hemoptysis, fever and chest pain.

This patient was taken a diverticulectomy and lobectomy of right lower lobe.

Post-operation course was uneventful.

서 론

성인에서 발견된 식도-기관지루는 비교적 드문 질환이며 특히 계실을 동반한 식도-기관지루는 1921년 Hawes⁶⁾가 42세 여자 환자에 대해 처음 발표한 후 매우 드물게 보고되고 있을 뿐이다. 국내에서는 정등¹⁹⁾과 허등²⁰⁾이 계실을 동반한 선천성 식도-기관지루를, 문등¹⁷⁾과 인등¹⁸⁾은 계실을 동반한 후천성 식도 기관지루를 각각 1예씩 보고하였다.

chu 등⁵⁾이 선천성 식도-기관지루의 병리학적 확진 소견을 제시하였으나 특히 식도-기관지루를 동반한 계실이 있을 경우 선천적인 것인지 후천적인 것인지는

감별이 용이하지 않으며 때로는 불가능하다. 오랫동안 유동식을 삼킴으로 유발되는 기침을 하면 선천적인 원인을 강력히 시사한다¹²⁾.

국립공주병원 흉부외과학 교실에서는 38세 남자환자에서 견인성 식도계실을 동반한 선천성 식도-기관지루 1예를 수술 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

38세 남자환자로 각혈, 기침과 열 및 흉부 통증을 주소로 내원하였다.

과거력상 유아기에서부터 음식물 섭취후 발작적으로 일어나는 기침과 자주반복되는 상기도 감염 및 폐렴을 앓았으며 내원 수년전부터는 각혈과 열 및 기침이 심해져 수차례 입원하여 치료를 받았다.

*국립공주병원 흉부외과

*Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery,
National Kong-Ju Hospital
1991년 5월 28일 접수

환자의 증세는 고식적인 폐렴치료로 쉽게 호전되다 곧 다시 음식물 섭취후 기침과 함께 재발되곤 하였다 한다.

입원 당시 이학적 소견상 환자의 영양상태는 양호하였으며 심음은 정상 소견이었다. 혈액검사상 혈색소 : 13.5g /dl, 혈구용적 : 40.7%, 백혈구 : 13,950 /mm³였으며 그중 Seg. neut. 는 78%, lymph. 14%, mono. 5%, Eosin. 1%였다.

신기능 및 간기능검사, 일반뇨검사는 정상범위였으며 심전도 검사도 정상이었다.

흉부단수 X-선상 우하엽부위에 섬유 증식성 음영이 넓게 증가되어 있어 폐렴 소견을 보였고(Fig. 1), 식도 조영술상 식도의 하1/3부위에서 오른쪽 후외측으로 용기된 직경 2cm 크기의 계실이 발견되었으며, 그 계실과 연이어 우하엽의 후저구역과 교통되는 식도 - 기관지루를 발견하였다(Fig. 2).

폐기능 검사는 VC : 100%, FVC : 83%, MVV : 104%, FEV1 : 93%로 정상이었다.

환자는 진성계실을 동반한 식도 - 기관지루의 진단 하에 수술을 시행하였다. 수술방법은 Levine관을 식도에 넣은 후 기관삼관 마취하에 우측 후측방 개흉술을 실시하였다. 우하엽 주위에 심한 늑막 유착이 있었으나 계실을 포함한 누관의 주위는 무사히 노출시킬 수 있었다(Fig. 3). 림프절 비대나 종양등은 발견할 수 없었다.

계실은 직경 2cm 정도이고 누관은 외경 5mm, 길이



Fig. 1. 술전 전면 단순 흉부사진



Fig. 2. 술전 식도조영술 사진



Fig. 3. 수술장면

E : Esophagus, F : Broncho-Esophagus Fistula, L : Lung

1cm로 우하엽의 후저구역과 교통하고 있었다. 우하엽 기관지 근처에 위치한 누관을 포함한 계실은 식도측으로부터 절제 봉합하고 우하엽 절제술을 시행하였다.

술후 9일째 식도조영술을 시행하여 누출이 없음을 확인한 후(Fig. 4,5) Levine 관을 제거하고 음식물을 경구투여하였으며, 기침등 임상증세와 합병증이 발생하지 않았다.



Fig. 4. 술후 전면 단순 흉부사진

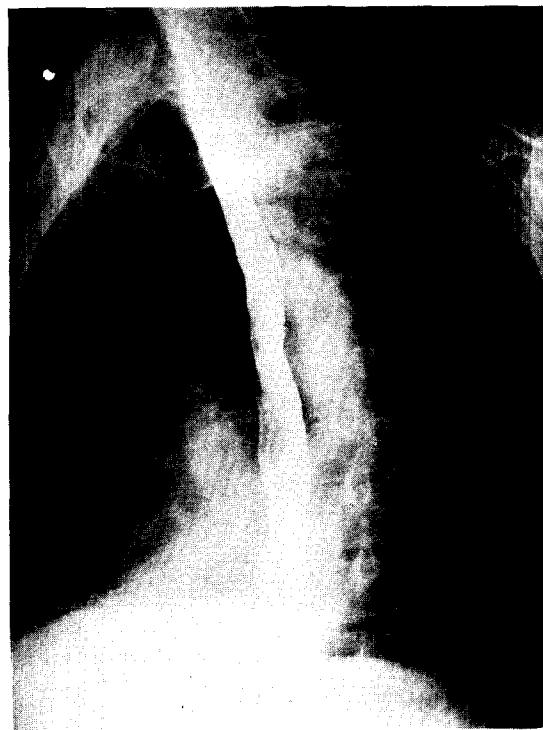


Fig. 5. 술후 식도 조영술 사진

조직소견은 누관내 근육층이 존재하였고, 상피세포는 식도쪽 누관의 편평상피와 기관지쪽 누관의 원주세포가 함께 존재하였으며 누관의 기관지쪽에서는 염증세포가 발견되었다. 우하엽은 출혈 및 괴사 그리고 수많은 농양으로 파괴되었다.

고 찰

식도기관지루는 선천적인것과 후천적인것으로 크게 구분할 수 있다. 선천성으로 식도폐쇄를 동반한 경우에는 영유아기에 증상이 나타나며 즉시 교정술을 시행해 주어야하나 식도폐쇄를 동반하지 않은 경우에는 증상발현의 기간이 다양하여^{3,11)} 성인에 이르러 발견되는 경우가 많다. 후천성의 경우 가장 흔한 원인은 악성종양에 의한 것인데⁷⁾ 대개 식도, 폐, 목 구조물등의 종양의 말기 증상으로 나타나며, 그외 손상, 결핵, 식도계실, 매독 양성협착등의 양성원인으로 나타나기도 한다^{4,14)}. 최근에는 장시간의 기관삽관에의한 후천성 식도-기관지루가 증가하고 있다⁹⁾.

루의 발생기전에 대하여 Smith¹³⁾는 배(Embryo)의 5mm 시기에 원시전장(Primitive foregut)의 복측으로부터 기시한 기관아(tracheal bud)가 급속히 자라 식도로부터 분리되며 만약 이 시기에 식도와 기관의 부착이 지속되면 그 결과로 식도기관지루가 된다고 하였다. 또 다른 결과로는 출산전에 자궁내 국소염증이 원인이 되어 embryonic bronchus와 esophagus의 유착이 일어나면 루로 남게 된다고 하였다.

Braimbridge와 Keith²⁾는 선천성 식도기관지루를 4 가지 유형으로 기술하였다. 제1형은 식도쪽에 목이 넓은 선천성 계실이 동반되고 여기에 이물질 등에 의한 염증이나 천공을 일으켜 그 결과로 식도 기관지루가 형성되는 상태며 제2형은 식도와 폐엽 혹은 폐구역 기관지 사이에 짧은 직선상의 통로가 생기는 형태며 제3형은 폐엽내에 낭종이 형성되어 식도와 연결된 상태며 제4형은 폐격리증내로 누관이 연결된 상태라고 하였다.

본 증례는 식도쪽에 계실이 동반된 제1형에 해당된다.

Chu등⁵⁾은 선천성 식도-기관지루의 병리학적 확진 소견으로 첫째 누관내 점막상피가 편평상피로 구성되어야 하며, 둘째로 누관내 근육층이 존재하여야 하며, 세째로 누관주위의 염증성 혹은 신생물의 증거가 없는 것을 들었다. 그러나 식도-기관지루를 동반한 계실이 있을경우 선천적인 것인지 후천적인 것인지는 감별이 용이하지 않으며 때로는 불가능하다. 오랫동안 음식물을 삼킴으로 유발되는 기침을 하면 선천적인 원인을 강력히 시사한다.

본 증례의 경우 유아기에서부터 음식물 섭취후 발작적으로 일어나는 기침과 그후 자주 반복되는 상기도 감염 및 폐렴의 임상 증세와 병리조직학적 소견에서 누관내에 근육층의 존재와 누관내 편평상피가 기관지 쪽의 원주상피로 이행되어 선천성인것으로 사료된다. 기관지쪽 누관의 염증세포는 심한 폐렴소견으로 파사된 우하엽의 영향이 아닌가 생각된다.

견인성 계실이 동반된 식도기관지루는 1921년 Hawes⁶⁾에 의해 처음 발표되었으며 William¹⁵⁾에 의해 견인성 계실과 루의 연결파의 연관성을 의문시 된다고 하였다.

식도-기관지루의 임상증세로는 객담을 동반한 기침, 각혈, 상기도감염, 반복되는 폐렴등의 호흡기계 증상을 주로 보이고 특히 음식물 찌꺼기가 포함된 객담, 음식물을 삼킬때 발작적인 기침등이 특징적이다. 그외 각혈, 연하곤란, 구토, 흉부동통, 애성등이 나타날 수 있다. 증상의 기간으로 Bekoe³⁾는 6개월에서 50년 사이로 다양하며 평균 17년으로 보고하기도 하고, 김¹⁶⁾은 5년에서 20년사이로 평균 9.8년을 보이고 있다고 하였으며, 본 증례는 30년 이상의 기간을 보이고 있다.

진단을 위해서는 과거병력, 이학적검진, 방사선검사 등이 이용되는데 흉부 단순촬영으로는 동반되는 폐병변을 나타낼뿐 식도-기관지루의 존재를 알수는 없으며 누공이 의심되면 식도 조영술을 시행함으로써 진단이 가능하다⁸⁾. 전통적인 식도 조영술로는 진단이 어려운 경우 식도 영화 촬영법이 신빙성이 높다고 하며³⁾ 기관지 조영술, 식도나 기관지 내시경 검사가 진단 및 동반된 질환의 여부를 검사하는데 도움을 준다.

치료는 수술적 교정이 가장 이상적이며, 개흉술로서 식도-기관지루를 직접 노출시켜서 이를 분리하여 주는 것이며, 폐손상이 있는 경우는 폐절제술도 함께 시행한다^{4,10)}. 직접적인 수술요법으로 교정을 할 경우 술전 증상이 거의 손실되며, 술후 합병증이나 재발도 별로 보고된 것이 없다.

결 론

국립공주병원 흉부외과학 교실에서는 38세된 남자 환자에서 견인성 식도계실을 동반한 선천성 식도-기관지루 1예를 수술치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Adams R, Wychulis, Henry Ellis, Jr., Howard A. Anderso : *Acquired nonmalignant esophago-bronchial fistula. Report of 36 cases.* J.A.M.A., 196 : 117, 1966
2. Braimbridge M.V., Keith H.I. : *Esophagobronchial fistula in the adult.* Thorax 20 : 226, 1965
3. Bekoe S., Magovern G.J., Liebler G.A., Park S.B., Cushing W.J. : *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult.* Chest 66 : 201, 1974
4. Coleman F.P. : *Acquired Non-malignant Esophagotracheobronchial Fistula.* Am. J. Surg. 93 : 221, 1957
5. Chu W., Mullen J.L. : *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult.* J.A.M.A. 239 : 855, 1978
6. Hawes J.B. : *Broncho-esophageal fistula and traction diverticulum.* Am. M.J.Sc. 161 : 791, 1921
7. Monserrat J.L. : *Fistulas tuberculosas esophagotracheobronquices.* Rev. As. Med. Argent. 155 : 438, 1941
8. Ronald, J. Nelson and John R. Benifield : *Benign esophagobronchial fistula.* Arch. Surg. 100 : 685, 1970
9. Ronald C. Hill, John E. Parker, Patrick J. Stocker, Donald G. Siebert, Robert A. Gustafson, Gordon F. Murray : *Acquired benign bronchoesophageal fistula in an adult.* J. Thorac. Cardiovasc. Surg. 97 : 321, 1989
10. Richard P. Anderson, David C. Sabiston : *Acquired bronchoesophageal fistula of benign origin.* Surg Gyno. & Obstet. 121 : 261, 1965
11. Salepcioglu A., Cebeci H., and Akcal T. : *Congenital esophagobronchial fistula in the adult.* Br. J. Surg. 64 : 581, 1977
12. Samuel J. Lang, Donald G. Mulder : *Congenital esophagobronchial fistula in an adult.* J. Thorac. Cardiovasc. Surg. 94 : 788, 1987
13. Smith D.C. : *A congenital broncho-esophageal fistula presenting in adult life without pulmonary infection.* Brit. J. Surg. 57 : 398, 1970
14. Wychulis A.R., Ellis F.H., Jr., Anderson H.A. : *Acquired Non-malignant Esophagotracheobronchial Fistula. Report of 36 cases.* J.A.M.A. 196 :

117, 1966

15. William R.C. Stewart., Karl P. Klassen, Alexander P. Horava : *Esophagobronchial fistula due to esophageal traction diverticulum. Review of literature and report of case.* A.M.A. Archives of Surg. 76 : 317, 1958
16. 김주현 : 성인에서 발견된 선천성 식도기관지루 수술치료 5례, 대한흉부외과학회지, 16 : 381, 1983
17. 문병탁, 김상형, 이동준 : 식도기관지루를 동반한 식도개설. 대한흉부외과학회지, 16 : 405, 1983
18. 인강진, 주홍돈, 임승평 : 견인성 식도개설에 동반된 식도-기관지루. 대한흉부외과학회지, 23 : 600, 1990
19. 정언섭, 김창수, 정조화, 박성달, 이재성, 조성래, 김송명, 이성행 : 성인의 선천성 식도기관지루. 대한흉부외과학회지, 22 : 880, 1989
20. 허용, 강경훈, 문경훈, 김병열, 이정호, 유희성, 손진희, 박효숙 : 성인의 식도 기관지루 6례 보고. 대한흉부외과학회지, 21 : 594, 1988