

단순 흉부 X선상 영양 혈관(Feeding Vessel)이 보인 낭종성 병변

순천향대학교 의과대학 내과학교실

김철현 · 어수택 · 정연태 · 김용훈 · 박춘식

증 례

16세된 여자환자가 내원 1개월 전부터 발생된 간헐적인 기침과 객담을 주소로 입원하였다. 과거력이나 가족력상 특이사항은 없었다. 내원 1개월전부터 기침과 흰색의 객담이 발생, 개인의원에서 상기도 감염이라는 진단 하에 투약을 받았으나 증세의 호전이 없었으며, 내원 전날 개인 병원에서 시행한 흉부 X선상 폐 농양이 의심되어(Fig 1-A와 Fig. 1-B) 본 병원으로 전원되었다.

이학적 소견상 환자는 비교적 건강해 보였으며 혈압 120/80 mmHg 맥박수 분당 80회, 체온은 36.8°C였다. 경부입과절은 촉진되지 않았고 흉부 청진상 호흡음 감

소, 나음, 천명등의 이상소견은 없었으며 복부, 배부, 사지 및 신경학적 검사상 특이소견은 없었다.

검사실 소견상 혈색소 12.3 mg/dl, 백혈구 9,600/mm³, 혈소판 223,000/mm³이었고 혈청학 검사도 정상 범위였으며, 객담의 결핵균도말검사도 음성이었다. Mycoplasma 항체는 음성이었고 cold agglutinin test는 1:64였다.

내원 당시 흉부 X선 사진상 좌하부 폐야에 비교적 균일한 음영을 가지는 관상(tubular)의 병변이 좌측심장과 겹쳐 관찰되었고 그리고 전날의 흉부 X선상에서 관찰되었던 기수위상(air-fluid level)이 많이 감소되었으며 가지상(bud-like)의 균일 음영이 관찰되었다(Fig. 2

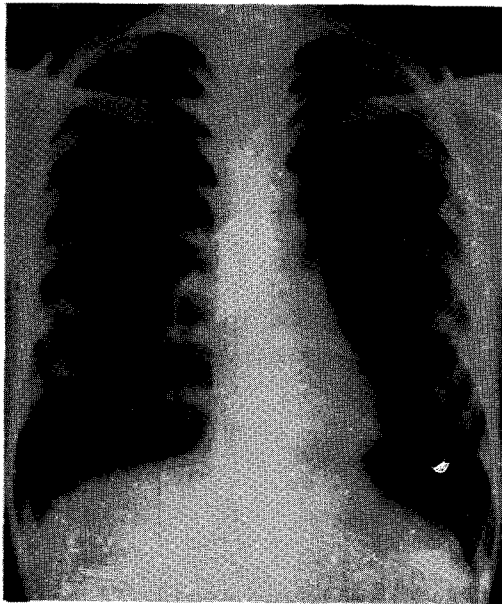


Fig. 1-A. Chest P-A before admission.



Fig. 1-B. Close-up of Fig 1-A shows cyst (arrow) with air-fluid level (arrowheads) in left lower lung field.

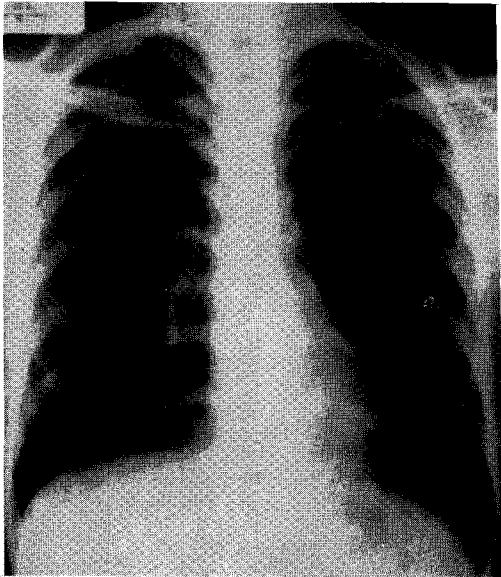


Fig. 2-A. Chest P-A at admission.



Fig. 3. Bronchogram shows normal contour of the bronchial tree.



Fig. 2-B. Close-up of Fig 2-A shows persistent cyst with improved air-fluid level when compared with Fig 1-B and homogenous bud like density (arrow).

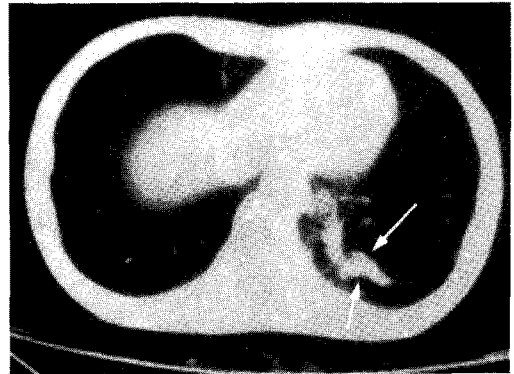


Fig. 4. Chest CT shows tubular shaped high density (indicated by arrows) suggesting feeding vessel is visible on the left posterior lower lung field.

-A와 2-B). 저자들은 환자의 병력, 객담, 나이등으로 보아 선천성 기형 즉, 기관지 낭종과 폐 격리증등이 의심되었으며, 이를 감별하기 위하여 기관지 조영술을 시행한 바, 정상소견을 보였다(Fig. 3). 그리고 이어 시행

한 흉부 전산화 단층촬영상 좌하부 폐야의 후부에서 관상의 증가된 음영이 굴곡된 양상으로 주행하고 있어 영양혈관(feeding vessel)의 존재를 시사하였다(Fig. 4). 영양혈관을 확인하기 위하여 시행한 대동맥 조영술상 복부대동맥에서 기시하여 좌폐의 후하엽구로 향하는 혈관이 관찰되었고 이 혈관은 폐정맥으로 유출되고 있어(Fig. 5, 6) 폐격리증으로 확진할 수 있었다. 환자는 항생제 치료 후 증세의 호전을 보였으며 현재까지 특별한 문제없이 지내고 있다.

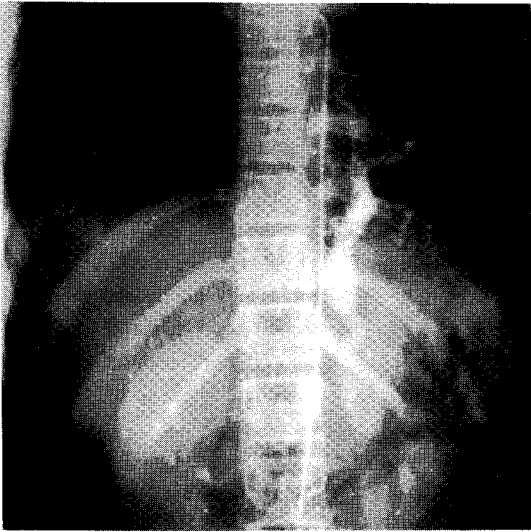


Fig. 5. Abdominal aortogram shows feeding vessel from the abdominal aorta.



Fig. 6. Abdominal aortogram shows feeding vessel supplying the left lower posterior segment.

고 안

폐 격리증(Bronchopulmonary sequestration)은 체 동맥으로부터 비정상적으로 혈액공급을 받는 미발육의 폐조직을 갖는 비교적 드문 선천성 기형이다. 그 발생기

전은 명확하지 않으나 Price¹⁾는 이상혈관이 발육중의 폐조직을 끌어당겨 정상폐조직과 분리시킨 후 이러한 이상혈관에 의해, 고립된 폐조직에 혈류공급이 이루어진 결과, 폐격리증이 발생한다고 하였고, Cockayne²⁾은 발육중인 폐아(lung bud)의 분리후 격리된 폐조직에 의해 혈관이 끌어 당겨져서 폐격리증이 발생한다고 하였다. 또한 Eppinger³⁾등은 정상적인 폐아(lung bud)의 원위부에서 원시전장(primary foregut)에서 발생된 고유혈관을 가진 additional tracheobronchial bud에 의해 폐격리증이 생긴다 하였고 Gebauer⁴⁾는 폐감염후 기관지동맥의 심한 비후에 의한 폐실질의 2차성 변화로 설명하고 후천성 발생설을 주장하였다.

폐격리증의 발생빈도는 선천성 폐기형의 0.15~6.4%⁵⁾로 다양하며 성별의 빈도는 남자에서 더 흔한 것으로 알려지고 있으나⁶⁾, 광동⁷⁾의 국내보고에 의하면 총 21례 중 남자가 12예, 여자가 9예로 외국의 보고와는 일치하지는 않았다.

대개의 경우 폐격리증은 정상폐와 공동 늑막을 갖는 내엽형과 고유 늑막을 갖는 외엽형으로 구분하며 Smith는 다음과 같이 감별을 하였다⁸⁾. 1) 기관지폐조직의 존재부위의 차이, 즉 내엽형은 정상늑막과의 분리없이 하후엽구에 국한되는 반면 외엽형은 횡경막의 상부 혹은 하부에서 분리된 고유늑막을 가진다. 2) 내엽형은 횡경막 상부 또는 하부 대동맥의 잘 발달된 동맥에 의해 혈류공급을 받으나 외엽형은 폐동맥이나 전신동맥의 눈에 띄지 않는 동맥에 의한 혈류공급을 받는다. 3) 내엽형은 폐정맥으로 혈류유출입이 되는데 비해 외엽형은 azygos나 hemiazygos vein 또는 문맥으로 유출된다. 4) 내엽은 60%정도에서 좌측에 위치하고 외엽형은 90% 이상 좌측에 있다. 5) 전장(foregut)과의 교통이 내엽형은 거의 없으나 외엽형은 비교적 흔하다. 6) 다른 선천성기형과의 동반이 외엽형에서 흔하다. 7) 신생아기에 발견되는 경우가 외엽형에서 흔히 있으나 내엽형은 거의 없다. 위와 같은 Smith의 주장은 이후 발표된 여러 보고에 의해서 뒷받침되고 있다^{5,9,10)}. 본 예에서는 복부 동맥에서 혈류공급을 받으며 폐정맥으로 유출되고 있고 그리고 병변이 좌측에 위치한 점등으로 미루어 내엽형으로 사료된다.

폐격리증의 증상은 다양하고 비전형적이며 대개 25세 이하에서 호흡기 증상등의 발현에 의해 발견이 되며 때로 우연히 발견되기도 한다⁵⁾. 본 예에서도 기침 및 객담

이 있으면서 흉부 X-선상 air-fluid상이 있는 동공이 있어 발견되었다. 내엽형의 경우 정상폐조직과의 소통에 의해 기침, 객담, 객혈, 미열, 흉통등의 증상이 소아기부터 계속 반복되고 증상의 장기화, 반복화가 특징적이며 외엽형은 위장관과의 소통이 없는 한 특별한 증상이 없으나 위장관과의 소통이 있을 경우 수유와 연관된 기침, 반복적인 폐렴이 나타난다¹¹⁾.

단순 흉부 X선 사진에서 비교적 경계가 뚜렷한 음영이 폐하부에서 보일 경우 폐격리증을 의심할 수 있다. 내엽형의 단순 흉부 X선 소견은 하엽에 낭포상 또는 고형음영을 가지며 염증에 의한 기수위가 2차적으로 생길 수 있으며 외엽형의 경우 균일 음영의 삼각형모양이 특징적이라한다^{5,9,12)}. 본 예에서도 낭포가 있으며 기수위가 동반된 소견을 보였다. 또한 다른 국내보고에 의하면 내엽형의 발생빈도가 20예 중 19예로 월등히 높았고, 흉부 X선 소견상 기수위는 48%에서 보였다⁷⁾.

폐 격리증의 확진을 위해서는 대동맥 조영술을 통한 비정상 체동맥을 확인하는 것이며^{12,13)} 최근 영상의학의 발전에 의해서 초음파 검사나 컴퓨터 단층촬영등으로 확진이 가능하게 되었다^{14,15)}. 본 예에서도 흉부 전산화단층촬영상 영양혈관의 존재가 발견되어 대동맥 조영술을 이용, 폐격리증을 확진할 수 있었다. 그리고 대동맥 조영술 상의 영양혈관과 흉부 X-선상의 관상(tubular)의 음영이 일치하는 것으로 보아 흉부 X-선상의 관상의 음영이 영양혈관으로 생각되었다. 상기 소견은 흔하게 보이는 소견은 아니나 단순 흉부 X-선상 폐하부에 관상의 음영이 보이는 경우 폐 격리증의 진단에 도움이 될 것으로 사료된다.

치료는 증상이 있는 경우 염증상태의 완화후 비정상 체동맥의 결찰후 폐엽절제술을 시행하고 증상이 없는 경우 정상폐조직의 파괴를 막기위한 예방적 절제술이 권유되고 있다^{9,16)}.

REFERENCES

- 1) Pryce DM: Lower accessory pulmonary artery with intralobular sequestration of the lung; a report of seven cases. *J Pathol Bacteriol* 58:457, 1946
- 2) Cockayne EA, Gladstone RJ: Case of accessory lungs associated with hernia through congenital defect of diaphragm. *J Anat* 52:64, 1917
- 3) Eppinger H, Schauenstein W: Krankheiten der lung. *Ergebn Allg Pathol* 8:267, 1959
- 4) Gebauer PW, Mason CB: Intralobar sequestration associated with anomalous pulmonary vessels. *Brit J Surg* 35:282, 1959
- 5) Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke HD, Knoche R: Lung sequestration: report of seven cases and reviews of 540 published cases. *Thorax* 34:96, 1979
- 6) Bruwer AJ, Clagett OT, McDonald J: Intralobar bronchopulmonary sequestration. *Am J Roentgen* 71:751, 1954
- 7) 광영태, 선경, 정원상, 문명탁, 이영욱, 이명희, 심영목, 박용구 : 폐격리증, 2예 보고 및 대한흉부외과학회지에 보고된 19예의 문헌고찰. *대한흉부외과학회지* 20:829, 1987
- 8) Abbey SR: Theory of origin of interlobar sequestration of the lung. *Thorax* 11:10, 1956
- 9) Ferguson TB: Congenital lesions of the lungs and emphysema. *Gibbon's surgery of the chest by Sabiston D C and Spencer F C, 4th ED, P686, W B Saunders Co, Philadelphia, 1983*
- 10) Cater R: Pulmonary sequestration. *Ann Thorac Surg* 7:68, 1969
- 11) Gerle FP, Jaretzki A, Ashley CA, Berne AC: Congenital bronchopulmonary malformation. *N Engl J Med* 278:1413, 1968
- 12) Gerard FP, Lyons HA: Anomalous artery in intralobar bronchopulmonary sequestration; Report of two cases demonstrated by angiography. *N Engl J Med* 259:662, 1958
- 13) Simopoulos AP, Rosenblum DJ, Majumdar H: Intralobar bronchopulmonary sequestration in children. *Am J Dis Child* 97:796, 1959
- 14) Baker EL, Gore RM, Moss AA: Retroperitoneal pulmonary sequestration computed tomographic findings. *AJR* 138:956, 1982
- 15) Jaffe MH, Bank ER, Sulver TM: Pulmonary sequestration: Ultrasonic appearance. *J Clin Ultrasound* 10:294, 1982
- 16) Roe JP, Mark JW, Shirley JH: Bilateral pulmonary sequestration. *J Thorac Cardiovasc Surg* 80:8, 1980

= Abstract =

Cystic Lesion with Visible Feeding Vessel in Chest PA

Chul hyun kim, M.D., Soo Taek Uh, M.D., Yeon Tae Chung
Yong Hoon Kim, M.D. and Choon Sik Park, M.D.

Department of Internal Medicine, College of Medicine, Soonchunhyang University, Seoul, Korea

Pulmonary sequestration is an uncommon congenital disorder and any specific finding has not been reported in chest P-A for diagnosis.

We experienced a case of pulmonary sequestraion with visible feeding vessel in chest PA which was well matched with aortic angiography. This finding may provide the clue for the diagnosis.