

## 선천성 식도기관지루

—수술치험 2례—

허진\* · 장봉현\* · 이종태\* · 김규태\*

—Abstract—

### Congenital Bronchoesophageal Fistula : Two cases

Jin Hur, M.D., Bong Hyun Jang, M.D., Jong Tae Lee, M.D., Kyu Tae Kim, M.D.\*

Two patients with congenital bronchoesophageal fistula were treated with surgical division.

The first case was a 56-year-old female patient complaining of aggravated coughing, fever and chest pain since 10 days before the visit. The above symptoms were mild and occurred intermittently since 17 years ago. After the fistula was confirmed on the esophagogram, it was treated with coil embolization. The coil had dislodged and couldn't be found two months later on follow up chest film.

The patient underwent a surgical division of the fistula and has been in good condition. The bronchoesophageal fistula belongs to type II in Braimbridge's classification.

The second case was a 5 year-old-female patient who suffered with cough intermittently since 2 years old and had history of recurrent pneumonia in infancy. An esophagogram revealed a fistula between the esophagus and the right lower lobe of the lung. An aortogram showed an abnormal systemic arterial supply to the right lower lobe of the lung. The sequestered right lower lobe was resected and the fistula was divided. This case may be the first case of type IV bronchoesophageal fistula in Korea. This case also had good operative result.

### 서론

식도기관지루는 선천성, 흉부손상, 염증성질환, 종양 등의 여러가지 원인에 의해 발생할 수 있으며<sup>1)</sup> 그중 선천성인 경우는 비교적 드문 질환으로 나타나있다.

최근 향상된 진단 기술과 적극적인 외과적 처치등에 의하여 선천성 식도기관지루의 발견이 속속 보고되고

있다. 국외에서도 이미 많은 예의 보고들이 발표되고 있다<sup>2)</sup>.

국내에서도 점차 증례가 많아지면 총괄적인 검토와 통계가 필요할 것으로 보인다.

이에 경북대학교 흉부외과 교실에서도 선천성 식도기관지루 2례를 수술 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고 하는 바이다.

### 증례 1

환자는 비교적 건강해 보이는 56세 여자로서 17년전 부터 가끔 기침, 발열, 사소한 각혈 등이 있어 지방의 료원에서 늑막염 진단하에 약물요법을 받은 과거력이

\*경북대학교병원 흉부외과학교실

\*Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Kyungpook National University Hospital.

있고 최근 입원 10일전부터 갑작스런 흉통, 호흡곤란, 발작성 기침이 발생하였고 특히 음식물 연하후 기침이 더욱 심하였다.

이학적 검사상 우하폐부위의 호흡음이 감소되어 있었고 약간의 습성 수포음이 들렸다. 그외 다른 이학적 소견이나 임상병리학적 검사에서는 이상이 없었다. 흉부 단순 촬영상 우하엽 폐야에 침윤이 있었으며(Fig. 1) 식도 조영술에서 제7흉추부에서 우측 중엽폐와 식도 사이에 식도기관루가 발견되었다(Fig. 2). 폐관류 스캔에서는 우하폐부위에 충만결손이 나타났고 폐기



Fig 1. Preoperative chest X-ray.

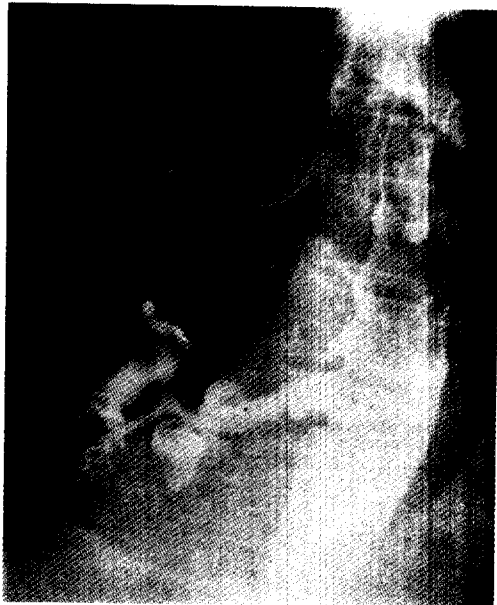


Fig 2. Preoperative esophagogram.

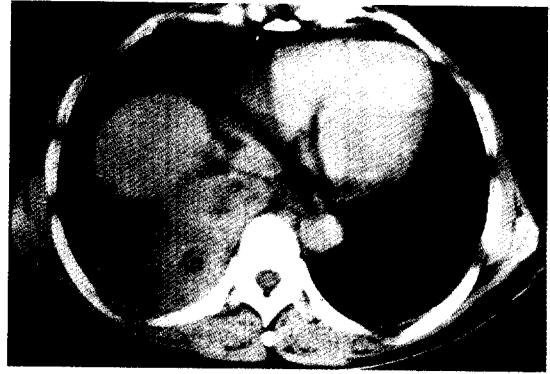


Fig 3. Preoperative CT scan.

능검사에서 FEV1 1.90L, FVC 2.74L로 나타났다.

기관지 내시경상 우중엽폐기관지 기시부 0.5Cm 하방서 직경 2-3mm의 구멍이 있고 급성 염증 소견은 없이 분비물의 지속적인 배출이 관찰되었고 식도내시경상 절치로부터 30Cm 정도에 직경 4mm 정도의 구멍이 관찰되었고 점막의 염증성 변화는 없었다.

흉부 컴퓨터 단층촬영상 우하폐 후측부에 종괴 음영과 주의 폐조직의 경화소견이 보이고 기관주위 임파선의 비후를 볼 수 있었다(Fig. 3). 우하폐의 컴퓨터 단층촬영 지시하에 조직 생검을 여러번 실시하였으나 악성조양의 증거는 발견할 수 없었다. 흉부대동맥조영술상 우하폐로 가는 이상 체동맥은 발견할 수 없었다.

우선 방사선과와 협조하여 식도기관지루에 5mm stainless steel coil 2개를 삽입하였다. 5일후 추적 식도조영술상 coil 한개는 miss되어 있었고 한개가 식도기관지루를 잘 폐쇄하여 식도와 기관지 사이의 연결이 보이지 않았다(Fig. 4).

퇴원후 추적 관찰상 시술 2개월에 coil이 없어진 것이 식도조영술상 관찰되어(Fig 5.) 수술을 실시하였다. 우측개흉술후 식도기관지루를 확인하고(Fig. 6) 루절제와 우하폐 기저엽의 부분절제를 실시하였고 술후 합병증 없이 제 15일에 퇴원하였다(Fig. 7). 누관은 길이 3cm정도로 누관 주위는 전혀 염증 소견이나 유착은 없었다.

병리소견상 누관은 coil embolization의 손상 때문인지 편평상피나 근육층은 보이지 않고 혈관확장소견, 점막하 출혈 및 섬유화 소견이 관찰되었다.

## 증 례 2

환자는 5세 여자로서 2세때부터 잦은 기침과 식사후

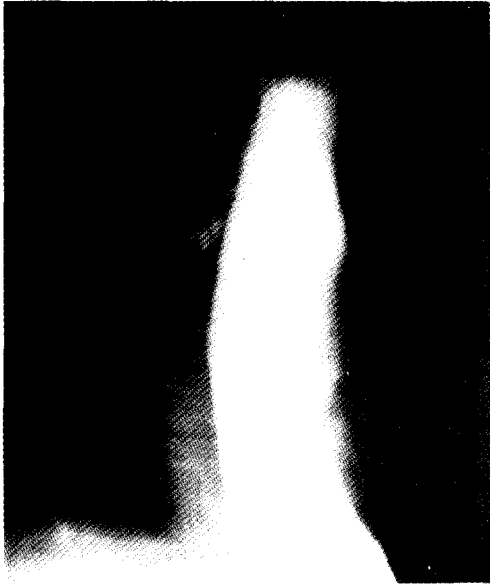


Fig 4. Post embolization esophagogram.

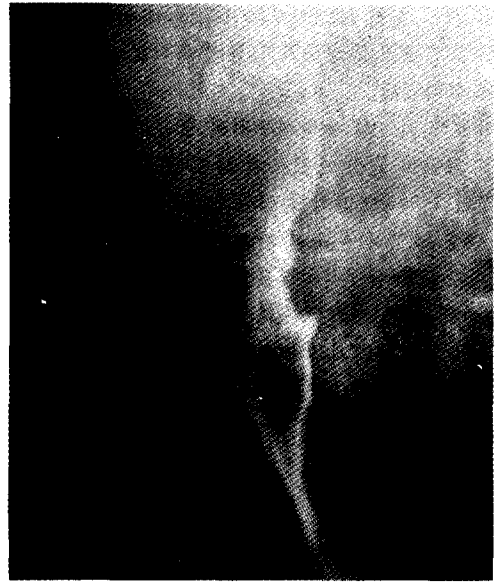


Fig 7. Postoperative esophagogram.

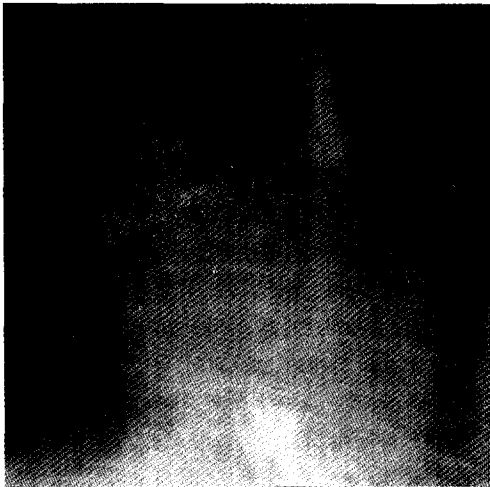


Fig 5. Follow up esophagogram shows dislodged coil (arrow).



Fig 8. Preoperative esophagogram.



Fig 6. Operative finding shows fistula (arrow).

발작적인 기침을 호소하였다. 이학적 검사상 우하폐부 위의 호흡음이 없었으며 약간의 미열을 동반하고 있었다. 흉부 단순 촬영상 우하엽 폐야에 불명확한 침윤 소견이 있었으며 식도 조영술에서 제 9흉추부에서 우하엽폐와 식도사이에 식도기관지루가 발견되었다 (Fig. 8). 우측 기관지 촬영상 우하엽폐와 우측 주기관지와 연결이 없었다 (Fig. 9). 복부 대동맥 촬영상 이상동맥이 우측하엽폐를 공급하고 그 혈류는 폐동맥으로 유출되어 좌우 단락 현상을 보였다 (Fig. 10).

수술 소견상 우측 중엽은 없었고 우측 하엽폐는 폐동맥 분지와 연결되어 있었고 횡격막을 뚫고 올라오는 많은 이상동맥의 혈류공급을 받았고 직경 4mm 길이 1cm 정도의 식도기관지루를 볼 수 있었다 (Fig. 11).



Fig 9. Preoperative bronchogram.

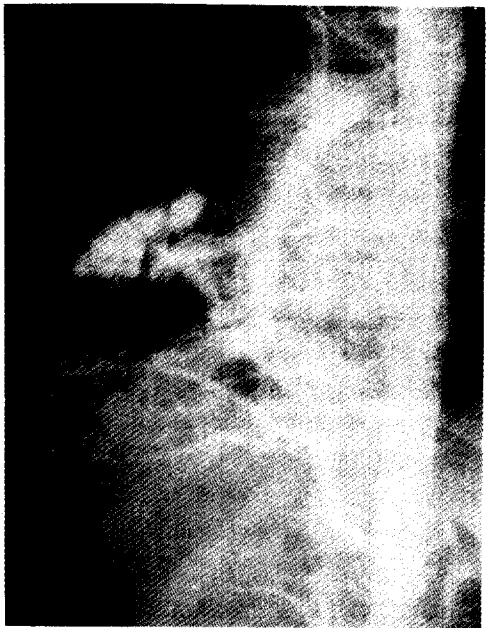


Fig 10. Preoperative aortogram.

폐정맥은 상엽 폐정맥만 좌심방에 연결되어 있었다.

우하엽의 완전 분리후 식도기관지루를 절제하고 식도는 두겹으로 봉합하였다. 병리소견상 누관은 편평상피로 내막을 형성하고 근육층으로 둘러싸여 있었다.



Fig 11. Operative finding shows fistula(arrow).

## 고 찰

식도기관지루는 선천성과 후천성으로 대별할 수 있고 다시 선천성은 식도 폐쇄 소견의 유무에 따라 나누어 볼 수 있다. 식도폐쇄가 동반되어 있으면 영아기에 조기수술을 요하고 사망율도 높다<sup>3)</sup>. 한편 선천성 식도기관지루가 식도폐쇄가 없이 뒤늦게 증상을 보일 수도 있어 후천성인 것과의 감별이 곤란할 수도 있다<sup>4)</sup>. 후천성인 경우 그 빈도가 가장 많은 것은 식도나 기관지계의 악성종양에 의한 것으로 나타나 있다<sup>5,6,7)</sup>.

선천성 식도기관지루의 원인은 태생 3mm stage에서 5mm stage로 길어지면서 기관과 식도사이의 분리실패로 보고 있다<sup>8)</sup>. 그리고 남녀의 발현비는 비슷하다.

Braimbridge와 Keith는 성인에서의 식도기관지루를 다음과 같이 분류했다.

Type I : 식도에 목이 넓은 개살이 동반되고 이것이 누공을 통해 폐속으로 들어가 있는 상태

Type II : 식도와 폐엽 혹은 폐구역기관지 사이에 짧은 직선상의 통로가 생기는 형태

Type III : 폐엽내에 낭종이 형성되어 식도와 누공으로 연결된 상태

Type IV : 폐격리층내로 식도기관지루가 연결된 상태

등의 4가지 형으로 나누고 있는데<sup>4,9,10)</sup> Type II가 가장 많은 형으로 증례 1은 Type II이고 증례 2는 Type IV로 국내최초의 증례로 보인다.

선천성인 것과 후천성인 것의 구별은 첫째 과거나

현재에 누공주위에 염증의 증거가 없거나 신생물의 증거가 없어야 하고 둘째 주위 입파선의 침범이 없어야 하며 셋째 편평상피와 근육층의 조직소견이 있어야 하나<sup>11)</sup> 엄격한 감별이 곤란할 때도 있다<sup>12)</sup>.

기관지 분포를 보면 우측에는 하엽기관지, 좌측에는 주기관지와 연결이 가장 많고 식도 계실이 원인이 될 경우 기관지나 주기관지보다는 2차 기관지나 3차 기관지에 더 많이 연결되어 있다<sup>4,13)</sup>. 전체적으로 가장 많은 분포는 식도 중 1/3과 우하엽기관지 사이이고 좌엽상과의 누공형성은 매우 드물다<sup>2)</sup>.

임상증상은 누공의 크기, 기간, 원인에 따라 다양하다. 호흡기증상이 81%로 가장 많고 기침, 객담, 질식, 각혈, 호흡곤란, 천명, 반복적인 흡인성 폐렴, 폐농양 기관지확장증 등이 있고 소화기 증상에는 연하곤란, 구토 그리고 토혈 등이 있다. 그외 전신 증상으로는 체중감소, 발열, 통증, 애성등을 볼 수 있다<sup>4)</sup>. 가장 특징적인 증상은 액성 음식을 섭취하면 발적성 기침이 발생하는데 Ono에 의하면 배와위로 하여 음식물을 삼키면 기침이나 질식이 사라진다고 한다(Ono's sign)<sup>14)</sup>. 보통 대부분의 환자들에서 복합적인 증상을 호소한다.

증상의 발현은 수개월에서 수십년사이로 다양하고 평균 17년으로 보고하고 있다. 선천성 질환에서 증상이 늦게 나타나는 것은 여러가지로 설명할 수 있는데 첫째 초기에는 누관에 얇은 막이 존재하다가 후에 파열된다는 설, 둘째 식도쪽에 점막주름이 후에 부전을 일으킨다는 설, 셋째 누관이 식도쪽이 낮게 경사를 이루고 있다는 설, 넷째 경도의 호흡기 증상에 환자가 적응을 한다는 설, 등<sup>1,15)</sup>이 있으나 완전히 공감가는 설명은 없다.

진단을 위해서는 과거 병력, 이학적검사, 방사선 검사 및 내시경 검사등이 동원되고<sup>4,14)</sup> 증상이 오래 지속되는 경우는 대부분 양성일 경우가 많고 호흡계 증상보다 연하곤란이 먼저 있으면 악성을 의심하는 것이 좋다<sup>16)</sup>. 우선 흉부 단순 촬영에서 동반되는 폐병변을 판단하고 기관지확장증이 의심될때 기관지조영술도 실시한다<sup>16)</sup>. 가장 중요한 것은 식도 조영술로 영화학식도촬영술이 가장 좋고 Barium은 기관지 점막의 손상이 가능하므로 thin Barium이나 diatrizoate sodium (Hypaque), iodized oil(Lipiodol)등의 조영제를 사용하는 것이 좋다<sup>17,18)</sup>. 누공이 작을때는 기관지경을 통해 식도에서 주입한 methylene blue를 발견하는 것이 도

움이 된다<sup>4,19)</sup>. 내시경 검사는 병변의 위치, 범위, 병리학적 검사 미생물학적 검사를 위하여 실시할 수 있고<sup>4)</sup> 생검은 유두상, 궤양성, 침윤성인 경우에 적용한다<sup>7)</sup>. 드물게 cuffed endobronchial tube 통해 positive pressure ventilation을 함으로써 진단될 수도 있고<sup>20)</sup> 영아에서는 콤퓨터 단순 촬영이 진단에 도움이 될 수도 있다<sup>21)</sup>.

누공의 자연 폐쇄는 드물기 때문에 상태만 적절하다면 가능한 조기 폐쇄가 좋다. 혹자는 누공이 양성일 경우 대부분 저절로 막힌다고 한다. 수술시기는 전신 상태에 따라 좌우되는데 상태가 양호하면 진단 즉시 수술에 임하고 수술 접근 방법은 누공의 위치와 정도에 따라 다른데 경부, 정중 흉골절개, 측방 또는 후측 방개흉술이 이용되는데 주로 우측 개흉술을 실시한다<sup>25)</sup>.

양성은 수술을 하지않으면 예후가 불량하므로 즉각 수술하여 분리하고 종격동의 육아성 질환인 경우는 수술에 의해서만이 치료되고<sup>19)</sup> 악성인 경우는 증상의 감소에 중점을 두고 여러 치료 방법을 시도한다<sup>16)</sup>.

3mm이하의 작은 누공시는 내시경하에서 silver nitrate나 sodium hydroxide로 소작 시킴으로서 치료가 가능하나<sup>26)</sup> 그 효과가 떨어지고 본 증례와 같이 누공내 폐쇄후 소작 치료를 동반하면 더 좋은 결과가 될 것으로 사료된다. 하나 소작법보다는 결찰법, 분리법<sup>5)</sup> 절제하지 않고 자동봉합기를 이용하는 법 등의 수술요법이 권장되고 있다.

수술시 고려할 점은 첫째 누공 주위에 궤양이 있으면 수술을 금기하고 둘째 과도한 술후 기침은 기관지 봉합선의 파열을 가져올 수 있고 셋째 영양상태가 불량한 환자에서는 tube feeling보다는 jejunostomy가 좋다는 것이다<sup>28)</sup>.

누공과 식도 계실 절제후에 식도 봉합은 David<sup>29)</sup>와 Coleman<sup>30)</sup>에 의하면 횡면에 따라 4-0정도의 봉합사로 2열로 실시하는 것이 좋다. 또 봉합자리에 흉벽 늑막이나 늑간근으로 보강할 수도 있다. 폐 병변이 같이 있을 시에는 폐절제도 같이 실시한다<sup>5,13)</sup>.

## 결 론

경북대학교 흉부외과학 교실에서는 2례의 식도 기관지루를 발견하고 수술적 방법으로 좋은 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- Braimbridge, R.M., Keith, H.i. : *Esophago-bronchial fistula in the adult. Thorax* 20 : 226, 1965
- William H.Risher, MD.et al : *Congenital Bronchoesophageal fistula. Ann Thorac Surg* 49 : 500-5, 1990
- 김자억, 노준량 : 선천성 기관지 식도루. -H 자형 수술 1예보고- 대한흉부외과학회지, 12 : 110, 1979
- Wychulis, A.R., Ellis, F.H., Jr., Anderson, A., : *Acquired Non-Malignant esophagotracheo-bronchial fistula. Report of 36 cases. J.A.* 196 : 117, 1966
- Anderson, R.P., Sabiston, D.C. Jr. : *Acquired bronchoesophageal fistula of benign origin. Surg. Gynec and Obst.* 121 : 261, 1965
- Monserrat, J.L. : *Fistulas tuberculosas esofagotracheo-bronquicas. Rev. As. Med. Argent.* 155 : 438, 1941
- Moersah, J.J., Tinney, W.S. : *Fistula Between esophagus and tracheobronchial tree. M. Clin. North. America.* 28 : 1001, 1944
- Ronan O'Rahilly, MD., Fabiola Muller, PHD. : *Respiratory and alimentary relations in staged human embryos. Ann Otol Laryngol* 93 : 421m 1984
- Wheeler, D. : *Diverticula of Foregut, Radiology* 49 : 476, 1947
- Cheitlin, M.D., Kamin, E.J., Wilkes, D.J. : *Midesophageal Diverticulum, Report of Case with Fistulous Connection with Superior Vena Cava. Arch. Intern. Med.* 107 : 252, 1961
- Brunner A. *Osophago-bronchioli fistula. Munchen Med Wochenschr* 1961 ; 103 : 2181-4
- Blalock, J.R. : Discussion of Hardy, J.D., Tompking, W.C., Ching, E.C., et al : *Esophageal Perforation and fistula : Review of 36 cases with operative closure of four chronic fistula. Ann. Surg.* 177 : 788, 1973
- Coleman, F.P. : *Acquired Non-malignant Esophageal sp. Fistula. Am. J.Surg.* 93 : 221, 1957
- Lukens, R.M., Ono, J. : *syphilitic tracheoesophageal fistula : Report of case. Laryngoscope.* 44 : 334, 1934
- Bekoe, S., Magovern, G.J., Liebler, G.A., Park, S.B., Cushing, W.J. : *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult, Chest* 66 : 201, 1974
- Ong, G.B., Kwong, K.H. : *Management of malignant Esophagobionchial Fistula. Surgery* 67 : 293, 1970
- Donald R. Judd., Theodore Dubuque., : *Acquired benign esophage-tracheobronchial fistula. Dis. Chest,* 54 : 69, 1968
- Pater Hutchin., Gustaf E. Lindskog., : *Acquired esophagobronchial fistula of infectious origin. J. Thoracic. Cardiovasc. Surg.,* 48 : 1, 1964
- Ferguson, T.B., Burford, T.H. : *Mediatinal Granuloma : a 15 years experiences. Ann. Thorac. Surg.* 1 : 125, 1965
- Grant DM, Thompson GE. : *Diagnosis of Congenital tracheoesophageal fistula in the adolescent and adult. Anesthesiology* 49 : 139-40, 1978
- Acosta JL, Battersby JS. : *Congenital tracheoesophageal fistula in the adult. Ann Thorac Surg* 17 : 5107, 1974
- Johnson JF, Sueoka BL, Mulligan ME, Lugo EJ. : *Tracheoesophageal fistula : diagnosis with CT. Pediatr Radiol* 15 : 134-5, 1985
- B.Davision Smith, Jr, MD. et al. : *Congenital Bronchoesophageal Fistula in the Adult. Ann Otol Rhinol Laryngol* 96 : 65, 1987
- David C. Sabiston, Jr., Frank C. Spencer., : *Gibbon's Surgery of the chest, 4th Ed., p767, W.B. Saunders Co., Philadelphia, 1983*
- 문병탁, 김상형, 이동준 : 식도기관지루를 합병한 식도개실. -1예보고- 대한흉부외과학회지, 16 : 405, 1983
- Clerf, L.H. : *Esophagobronchial Fistula ; report of two cases. Tr. Am. Laryng., Rhin. & Otol. Soc.,* 35, 1945
- Weissberg, D., Kaufman, M. : *Bronchoesophageal fistula in adult : congenital or acquired? J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 99 : 756-757, 1990
- Felix A. Hughes, Jr., M.D. et al. : *Acquired nonmalignant esophagotracheobroncheal fistula. Report of two cases ; J. of Thoracic Surg* 384, 1953
- David, P. Boyd, Herbert, D. Adams : *Esophageal Diverticulum. N. Engl. J. Med.* 264 : 641, 1961
- Coleman, F.P., Bunch, G.H., JR. : *Acquired Nonmalignant Esophagotracheobronchial Fistula. J. Thorac. Surg.* 19542, 1950