

단일화수술 후 분리되어 남은 체폐동맥 부행혈관에 의한 기관지 압박

이 현 성* · 박 영 환* · 홍 유 선* · 조 범 구*

=Abstract=

External Compression of Bronchus by Aneurysm from Divided Major Aortopulmonary Collateral Artery after Unifocalization

Hyun Seong Lee, M.D.*, Young Hwan Park, M.D.*,
Yoo Sun Hong, M.D.*, Bum Koo Cho, M.D.*

Multistage unifocalization and complete repair have been performed for pulmonary atresia, ventricular septal defect, and major aortopulmonary collateral arteries. We reported a case that divided major aortopulmonary collateral artery was changed into an aneurysm that compressed the left main bronchus. A 1-year-8-month old boy was operated. The Rastelli operation with left pulmonary artery reconstruction, ligation of patent ductus arteriosus and take-down of right Blalock-Taussig shunt was performed on the patient who had pulmonary atresia, ventricular septal defect, patent ductus arteriosus and MAPCA at 1 year and 8 months of his age. He previously underwent the unifocalization and right B-T shunt at 9 months of age. He repeatedly had difficulty in weaning from the mechanical ventilator. After removing the aneurysm from the divided MAPCA that compressed the left main bronchus externally, it was possible to wean him from the mechanical ventilator.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1999;32:1135-40)

Key word : 1. Pulmonary artery, collateral
2. Unifocalization

증 례

환아는 1년 8개월된 남아로 체중은 10.8 Kg이며 생후 1주일경 빈호흡이 있어 생후 20일경 실시한 심초음파에서 심실중격결손을 동반한 폐동맥폐쇄, 동맥관개존증, 하행대동맥에서 기시하는 큰 체폐동맥부행혈관이 존재하였다. 이후 잦은 상기도 감염에 의한 고열이 있었고 생후 8개월경 실시한 심도자 및 혈관조영술에서 전방전위된 심실중격결손, 주폐동맥

의 존재, 대동맥궁에서 기시하여 우상엽으로 가는 체폐동맥 부행혈관과 하행대동맥에서 기시하여 우하엽으로 가는 부행혈관, 동맥관개존증을 동반한 폐동맥폐쇄를 확인할 수 있었다. 상기 진단 하에 생후 9개월에 우측 후측부 개흉술로 우상엽으로 가는 부행혈관의 단일화술과 우하엽으로 가는 부행혈관의 결찰, 우측 수정된 Blalock-Taussig 단락술을 시행하였다. 환아는 순조롭게 호흡기 이탈이 되었으며 별문제없이 술후 10일째 퇴원하였다. 이후에도 잦은 호흡기증상은 계속

*연세대학교 의과대학 심혈관센터 심장혈관외과

Department of Cardiovascular Surgery, Cardiovascular Center, Yonsei University College Of Medicine

† 본 논문은 1998년 7월 24일 제183차 월례집담회에서 구연되었음.

논문접수일 : 99년 4월 14일 심사통과일 : 99년 10월 11일

책임저자: 박영환 (120-752) 서울특별시 서대문구 신촌동 134번지, 세브란스병원 심장혈관센터. (Tel) 02-361-7283, (Fax) 02-313-2992,

E-mail: yhpark@yumc.yonsei.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

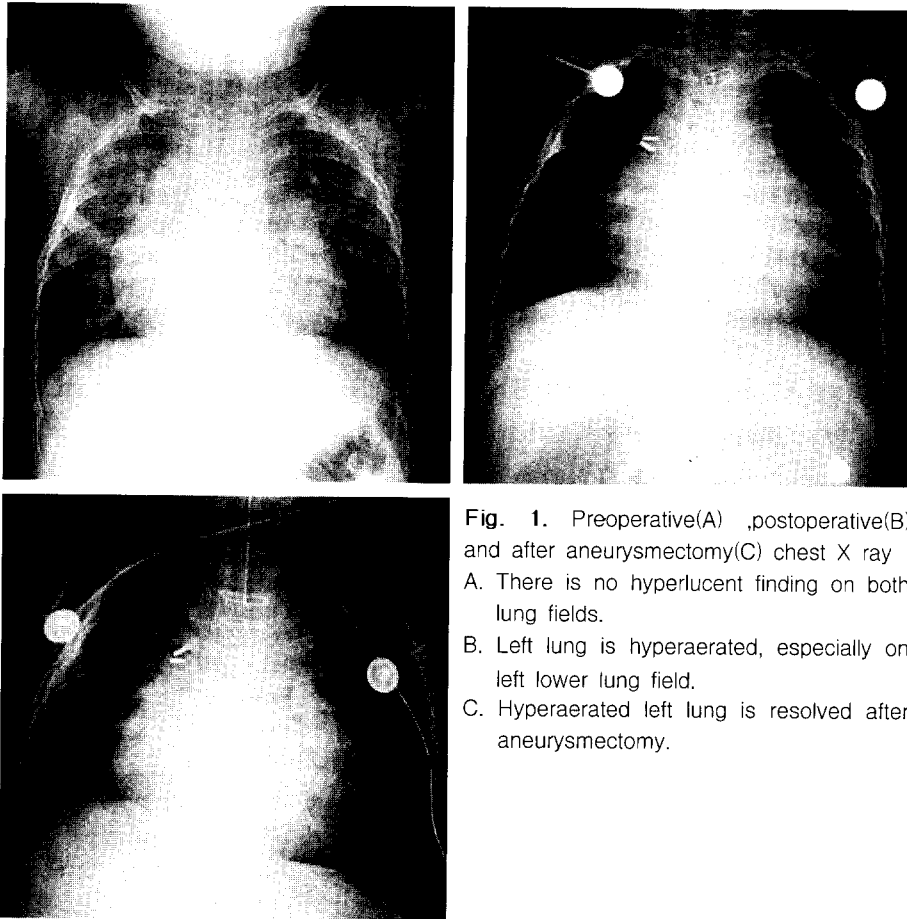


Fig. 1. Preoperative(A), postoperative(B) and after aneurysmectomy(C) chest X ray
A. There is no hyperlucent finding on both lung fields.
B. Left lung is hyperaerated, especially on left lower lung field.
C. Hyperaerated left lung is resolved after aneurysmectomy.

되었다(Fig. 1-A). 생후 1년 8개월에 정중흉골절개술 후 Rastelli술식, 좌폐동맥 재건술, 우측 Blalock-Taussig단락 폐쇄, 동맥관개존증 결찰을 진신마취하에 시행하였다. 수술 직후 흡입산소분압(FiO_2) 0.6, 통제형 기계호흡 방식(CMV), 호흡수 20회, 호기종말양압(PEEP) 5 CmH_2O 에서 동맥혈검사상 pH 7.43 산소분압 121.5 mmHg, 이산화탄소분압 39 mmHg, 산소포화도 99% 이었고, 종격동 출혈은 10시간동안 290 ml이었다. 종격동출혈은 감소추세이었으며 혈압 101/62 mmHg 맥박수 153/분으로 활력징후도 안정되었다. 흡입산소분압 0.6, 간헐적자발호흡방식(SIMV), 호흡수 20회/분에서 pH 7.45, 산소분압 102 mmHg, 이산화탄소분압 35 mmHg, 산소포화도 98% 이었고 우심실/좌심실압력비가 0.7-0.75를 유지하였다. 수술 1 일째부터 흉부단순촬영상 왼쪽 폐가 과팽창되는 소견이 보이기 시작했고(Fig. 1-B) 호흡음도 왼쪽폐(특히 좌하폐구역)에서 약하게 청진되었다. 수술 2일째부터는 우심실/좌심실압력비가 0.5-0.6 정도로 계속 유지되었으며 혈류역학적인 문제는 없었다. 자발호흡시 빈호흡소견보이며 장폐색증세 있어서 지속적인 진정을 시키면서 잦은 기관내 흡입을 시행하였고 총비경구적영양공급(TPN)을 하였다. 수술 8일째 이탈을 시도하였으나 100% T-piece에서 pH 7.2, 산소분압 67 mmHg,

이산화탄소분압 76.9 mmHg, 산소포화도 87%로 이탈실패하였다. 환아는 간헐적자발인공호흡방식(SIMV)에서는 견디지 못하는 기도양압방식(CPAP)이나 T-piece에서는 산소포화도가 80%정도까지 떨어지고 이산화탄소가 축적되며 분당 80회 이상의 빈호흡이 반복되고 청색증을 나타내는 양상으로 계속적인 이탈실패를 유발하였다. 수술 10일째 심초음파 검사에서 좌심실박출률(LVEF)이 50%이었고 폐동맥 도관이 눌리거나 좁아진 소견은 보이지 않았고 혈류역학상태는 좋았다. 수술 15일째 실시한 전자선단층촬영(Electron Beam Tomography)에서 좌측주기관지가 외부의 압박에 의해서 좁아져있는 소견이 보였으며 양측 폐동맥은 정상크기로 폐쇄 등의 이상소견은 보이지 않았다. 수술 16일째 기관지내시경을 실시한 결과 기관분기부(carina)에서 좌측주기관지에 걸쳐 전방부와 후방부에 박동하는 종괴가 외부에서 압박하는 소견을 보였다. 이로 인해 혈압이 올라갈 때는 외부압박이 심해져 좌측주기관지가 매우 좁아지면서 산소포화도가 감소하는 소견을 관찰할 수 있었다. 수술 전 심도자와 혈관촬영검사서 부행혈로의 근위부위에 조영제가 차는 동맥류가 관찰되었는데 위치상 우상엽으로 가는 부행혈로의 근위부 결찰부위로 이 부위에 종괴 양상의 병변이 형성됨을 의심하였다(Fig. 2). 술

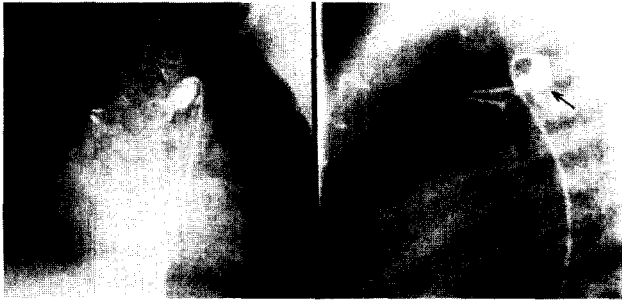


Fig. 2. Angiographic Findings. The arrow indicates an aneurysm from the divided major aortopulmonary collateral artery.

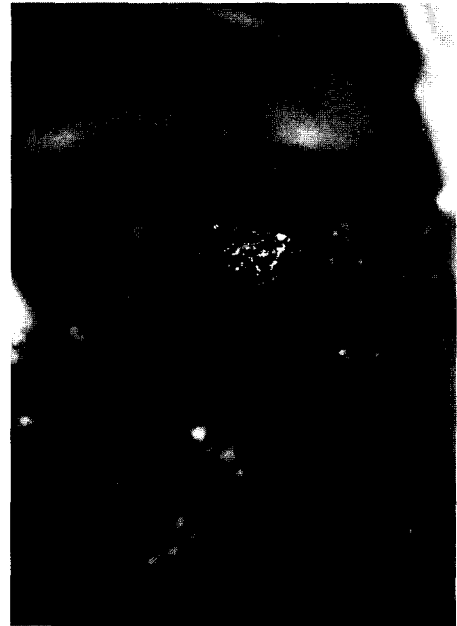


Fig. 3. Operative Findings. There is an aneurysm originating from the inferior wall of proximal aortic arch. It is about 12 mm in diameter. Feeding vessel is about 4 mm in diameter, 7 mm in length. After ligation of the feeding vessel, the aneurysm filled with thrombi is removed.

후 18일째 실시한 심도자와 혈관촬영 검사에서 기관분지부에서 좌측주기관지를 외부에서 압박하는 위치에는 조영제가 채워지는 종괴 양상의 병변은 관찰되지 않았다. 부행혈로 근위부 결찰부위가 확장되며 이 부위에 혈전이 채워지면서 종괴를 형성하며 대동맥의 박동에 의해서 좌측주기관지 쪽으로 박동함을 의심하였다. 술후 19일째 X선 투시검사(fluoroscopy)에서 우측 횡격막의 역행성운동조건 보여 우측 횡격막신경마비도 같이 진단되었다. 술후 22일째 분리된 부행혈관으로부터 기원한 동맥류의 절제와 우횡격막 주름성형술을 같이 시행하였다. 수술소견은, 대동맥궁 기시부의 직후방과 폐동맥상방에 지름이 약 12mm의 동맥류가 있었다. 영양혈관(feeding vessel)은 대동맥의 후방에서 기시하고 있었고 지름이 약 4mm, 길이가 약 7mm이었다. 영양혈관을 결찰 후 동맥류벽을 절개 후 약 3cc의 혈전을 적출하였고, 동맥류벽을 절제하였다(Fig. 3). 수술후 기관지경을 실시한 결과 90% 이상의 협착이 기관분기점에서 좌측기관지로 이행되는 부위에서 관찰되었으나 내시경이 협착부위를 부드럽게 통과했으며 박동성은 관찰되지 않았다. 수술직후 동맥혈검사상 흡입 산소분압 0.45, 간혈적자발호흡방식(SIMV), 호흡수 25회/분에서 pH 7.45, 산소분압 126 mmHg, 이산화탄소분압 38 mmHg, 산소포화도 99% 이었다. 기관내 분비물이 많아서 기관내 흡입을 자주 해야 했으며 자가호흡이 증가해서 생겼던 장폐색을 해결하기 위하여 일단은 자가호흡을 없애고 기관내 흡입에 집중하였다. 계속 금식하며 총비경구적영양공급을 시행하였으며 계속적으로 진정시켰다. 흉부단순촬영상 좌측 과팽창되는 소견은 사라졌지만(Fig. 1-C) 술후 6/25일째 실시한 기관지내시경 상에는 기관지 압박으로 돌출되어 있는 부분이 아직 남아 있는 소견을 보였다. 활력 징후는 계속 안정되었으며 장폐색 호전후 술후 7일째 무사히 이탈과 발관을 시행하였다. 발관 직후 동맥혈검사상 50% mask 에서 pH 7.43, 산소분압 255 mmHg, 이산화탄소분압 41 mmHg, 산소포화도 100% 이었고 분당 50 회 정도의 약한 빈호흡 소견은 있었지

만 동맥혈 검사가 계속 양호하였으며 청색증이나 발한 등의 소견은 없었다. 술후 10/29일째 병실로 옮겨졌고 술후 13/32일째 실시한 심초음파 검사에서 좌심실박출율 60%이었고 혈류역학상태는 좋았으며 술후 20/39 일째 퇴원하였다.

고 찰

심실중격결손을 동반한 폐동맥폐쇄증의 빈도는 1000명 출생당 0.042명¹⁾으로 이중 25%에서 체폐부행혈관을 지니고 있다고 한다²⁾. 부행혈관은 보통 하행흉부대동맥에서 기원하나 대동맥궁이나 쇄골하동맥, 경동맥 또는 관상동맥에서도 기원한다. 이들은 폐내동맥들과 직접 연결되기도 하나, 다양하게 폐문 폐동맥, 또는 중심폐동맥에 연결되기도 한다. 그래서 이들은 한 개이상의 구역에서 한 개이상의 폐엽, 심지어는 폐전체까지 폐의 다양한 영역에 피를 공급한다. 이들의 완전 교정술을 하기 위해서는 여러 기원의 폐혈류를 단일화시켜야 하는데 이를 단일화 수술이라고 한다.

단일화수술에 대해서는 Haworth등³⁾이 처음 기술하였는데, Sullivan등⁴⁾에 의한 초기 결과가 실망스러움에도 불구하고 꾸준한 노력으로 현재의 다단계적 수술의 개념이 정착되었다. 단일화수술의 합병증으로 혈흉, 객혈, 식도 출혈, 기관지 출혈, 부행혈관과 중심폐동맥사이에 연계가 없는 상태에서 부

행혈관 결찰을 시행한 경우 폐경색²⁾등이 보고되었다. 술후 3개월째 중심 단일화수술 이식편이 우측 주기관지를 침식하여 객혈로 사망한 경우도 보고되었다⁵⁾. 본 증례는 우측부 개흉술을 통한 대동맥궁에서 기시하는 부행혈관을 단일화함에 따라 대동맥궁에 남아있는 부행혈관이 동맥류를 형성하여 기관지를 압박한 증례를 처음으로 보고하였다. 이러한 합병증을 예방할 수 있는 방법을 다음과 같이 생각해 볼 수 있겠다.

첫번째, 접근방법의 문제에 대해서 고려해 볼 수 있겠다. 단일화 수술의 접근방법은 중심적 접근과 말초적 접근이 있다. 중심적 접근은 보통 정중 흉골절제술을 시행하고 중심폐동맥의 성장이 강조된다. 이러한 접근은 중심 폐동맥이 미성숙 되었지만 연결문제가 심하지 않는 경우에 가장 유용하다. 말초적 접근은 외측 개흉술을 시행하고 폐혈류공급이 강조된다. 폐의 독립된 구역에 혈액공급의 기원이 다양할 때 사용된다. 동측 중심폐동맥에 폐문부위에서 부행혈관들을 연결함에 의해 가능하고 수정된 Blalock-Taussig단락이 흔히 사용된다⁴⁾. 본 증례는 대동맥궁의 부행혈관을 우측 후측부 개흉술을 통하여 결찰을 시행하였기 때문에 부행혈관의 기시부까지 접근하는 것이 거의 불가능하였다. 이렇게 부행혈관의 기시부가 대동맥궁인 경우는 중심적 접근을 시행하거나 반대측 개흉술을 통해 기시부에 아주 근접하여 결찰을 해야 할 것이다.

두번째, 수술 전 또는 후에 코일 색전술을 고려해 볼 수 있을 것이다. 술전 혈관 조영술상 이중혈류공급을 받거나 폐혈류공급에 크게 영향을 주지 않는 작은 부행혈관들은 가능한 모두 색전술을 시행한 후에 수술을 진행하는 것이 이러한 합병증을 막을 수 있다. 본 증례에서 문제가 된 부행혈관은 한엽 전체를 단독으로 지배하고 있었기 때문에 코일 색전술을 시행하지는 못했다. 이차수술 전 혈관촬영상 동맥류를 발견했었지만, 수술전 흉부 단층촬영상 한쪽 폐가 과팽창되어 있거나 호흡곤란 등의 증상이 없었기 때문에 큰 문제가 되지 않을 것으로 판단되어 특별한 치료를 시행하지 않았다. 그러나, 이차수술 전과 후의 혈관촬영을 비교해 보면 술전에 보였던 동맥류의 흐름이 관찰되지 않았다. 동맥류 내에 혈전이 형성되어 이가 맥동하면서 기관지를 압박하였을

것으로 생각된다. 이차수술 전 코일 색전술이나 수술당시 동맥류 절제술을 시행하였으면 이러한 합병증을 방지할 수 있었을 것이다.

단일화 수술전 폐순환의 정확한 정보로, 가장 적절한 수술적 접근에 대한 결정이 중요할 것이다. 우리나라에서는 대동맥궁에서 기시하는 부행혈관의 발생빈도가 Ishizaka et al.등이 보고한 1.7%⁶⁾ 보다 최재영 등이 12%⁷⁾로 높게 보고하고 있다. 또한, 이들은 우상엽의 전폐분절 및 좌하엽의 상,하설 분절로의 분포가 많았다고 보고하고 있다⁷⁾. 그러므로 우리나라에서는 대동맥궁에서 기시하는 부행혈관의 결찰에 좀더 세심한 주의를 기울여야 할 것이다.

참 고 문 헌

1. Fyler DC. Report of the New England regional infant cardica program. Pediatrics 1980;65(suppl):375-461.
2. Reddy VM, Liddicoat JR, Hanley FL. Midline one-stage complete unifocalization and repair of pulmonary atresia with ventricular septal defect and major aortopulmonary collaterals. J Thorac Cardiovasc Surg 1995;109:832-45.
3. Haworth SG, Macartney FJ. Growth and development of pulmonary circulation in pulmonary with ventricular septal defect and major aortopulmonary collateral arteries. Br Heart J 1980;44:14-24.
4. Sullivan ID, Wren C, Stark J, de Leval MR, Macartney FJ, DeanField JE. Surgical unifocalization in pulmonary atresia and ventricular septal defect. A realistic goal?. Circulation 1988;78(suppl):III 5-13.
5. Puga FJ, Leoni FE. Complete repair of pulmonary atresia, ventricular septal defect, and severe peripheral arborization abnormalities of the central pulmonary arteries: Experience with preliminary unifocalization procedures in 38 patients. J Thorac Cardiovasc Surg 1989;98:1018-29.
6. Ishizaka T, Yagihara T, Yamamoto F, et al. Results of unifocalization for pulmonary atresia, ventricular septal defect and major aortopulmonary collateral arteries: Patency of pulmonary vascular segments. Eur J Cardio-thorac Surg 1996;10:331-8.
7. 최재영, 이종균, 차응석, 설준희, 이승규, 최규옥. 심실중격결손을 동반한 폐동맥폐쇄에서 선천적 우회순환의 기시 및 분포. 대한순환기학회지 1998;28(9):1561-76.

=국문초록=

폐동맥폐쇄, 심실중격결손, 체폐동맥부행혈관은 다단계적 단일화술을 통한 완전교정술이 행해지고 있다. 단일화시 합병증으로 단일화후 분리되어 남은 부행혈관의 동맥류 변성이 좌측주기관지를 압박하였던 1 예 체험하였기에 보고하는 바이다. 심실중격결손을 동반한 폐동맥폐쇄, 동맥관개존증, 대동맥궁과 하행대동맥에서 기시하는 체폐동맥부행혈관이 있던 남아에서 생후 9개월에 단일화술, 우측 수정된 Blalock-Taussig 단락술을 시행하였고 생후 1년 8개월에 Rastelli술식, 좌폐동맥 재건술, 우측 Blalock-Taussig 단락 폐쇄, 동맥관 개존증 결찰을 시행하였다. 술후 반복되는 인공호흡기 이탈실패로 좌측 주기관지의 외부적 압박 소견 확인후 동맥류 제거후 인공호흡기 이탈이 가능하였다.

중심단어 : 1. 부행 폐동맥
2. 단일화수술