

동맥관으로 오인된 좌폐동맥 결찰에 대한 재수술 치험

송 태 승* · 윤 태 진* · 민 경 석* · 서 동 만*

=Abstract=

LPA Occlusion Due to the Erroneous Ligature of Patent Ductus Arteriosus: a report of 3 cases

Tae Sung Song, M.D.*, Tae Jin Yoon, M.D.*, Kyong Suk Min, M.D.*,
Dong Man Seo, M.D.*.

Confusion of a patent ductus arteriosus (PDA) for the descending thoracic aorta is a fatal error occurring occasionally in infants or neonates. As a result, the left pulmonary artery (LPA) may be misconceived as the PDA, and ligated. This surgical mishap of other hospital leads to serious congestive heart failure and loss of left lung function due to the underdevelopment in the peripheral vascular and alveolar structures in neonates and premature infants. In this report, 3 cases of LPA ligation and subsequent treatment are presented.

(Korean Thorac Cardiovasc Surg 2000;33:422-7)

Key words : 1. Patent ductus arteriosus
2. Obstruction of left pulmonary artery

증례 1

생후 14일된 환아는 임신 37주에 3300g으로 자연분만으로 출생하였으나, 출생후 DeGorege syndrome으로 진단받고 치료하는 도중에 지속되는 늑골하퇴축과 빈호흡이 있어 심초음파를 시행하여 동맥관 개존증을 진단받았고, 출생 5일후에 동맥관 결찰술을 시행받았다고 하였다. 수술후 검사된 심초음파상에서 동맥관 개존증은 남아있는 상태에서 좌폐동맥의 혈류가 관찰되지 않았고, 수술후부터 전신부종을 동반한 심부전증상이 나타나면서 급성 신부전과 간부전이 동반되어

다발성 장기손상(multiple organ failure)이 의심이 되어, 수술후 5일째 전원되었다. 전원당시 이학적 검사상에서 낮게 위치한 귀와 확장된 머리 둘레를 보였고, 전신적인 피부발진이 있으면서 피부탄력이 감소되어 있었고, 기도 삽관된 상태로 전신부종이 관찰되었다. 복부에서는 2횡지정도의 간이 축지되었고 비장도 축지되었다. 심정진상에서 좌상흉골연에서 4/6도의 지속적 심잡음이 들렸고 호흡음은 양쪽 모두에서 심한 흡기시 잡음이 들렸다. 흉부 단순 촬영검사상에서는 우폐엽에 여러개의 경계가 불분명한 patch radiopacity가 있었고, 좌하엽은 무기폐로 대부분의 homogenous radiopacity가 보여

*서울중앙병원 흉부외과, 울산대학교

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Asan Medical Center, Collage of Medicine, University of Ulsan

논문접수일 : 99년 11월 9일 심사통과일 : 2000년 3월 25일

책임저자 · 서동만(138-736) 서울특별시 송파구 풍납동 388-1, 서울중앙병원 흉부외과 소아심장외과분과 (Tel) 02-2224-3575,
(Fax) 02-2224-6966

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

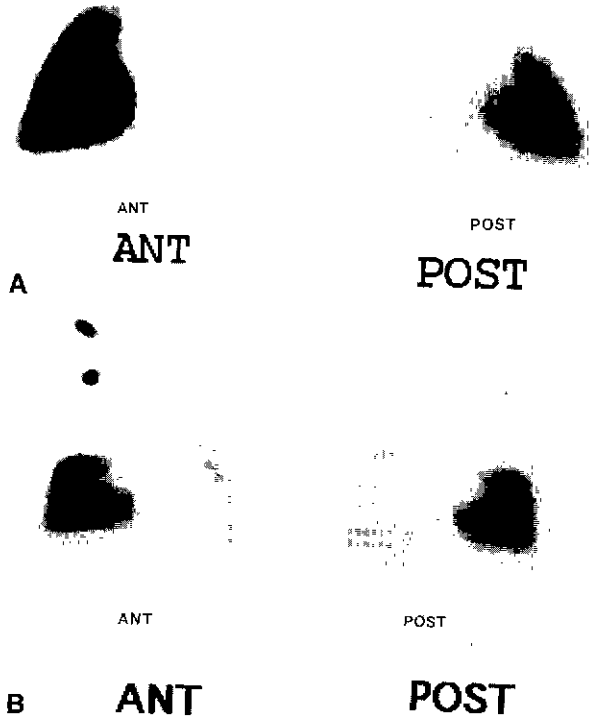


Fig. 1. Lung Perfusion scan in the case 1
A: Preoperative film, B: Postoperative film

폐렴 및 다발성 장기손상이 의심되었다. 전원후 신생아 중환자실로 옮겨 인공호흡기를 부착하였고, 심부전 치료로써 Dopamin 5 µg/Kg/min을 사용하였다. 본 원에서 시행한 폐관류 검사상에서는 좌측폐의 혈류흐름이 관찰되지 않았고(Fig. 1), 심초음파의 결과상에서 2차성 심방중격결손증, 4 mm 크기의 동맥관 개존증이 있으면서 좌폐동맥은 보이지 않았다. 수술전 동맥혈 검사상에서 pH 7.3, PaCO₂ 45.5, PaO₂ 51.3, O₂sat 82.8 이었으며, 혈액검사에서는 WBC 18000, Hgb 9.2, Hct 26.0, platlet 67000이었고, OT/PT 427/370, Tbili 5.4, BUN/Cr 73/4.0 이었다. 혈액배양검사서 포도상 썩구균(*Staphylococcus aureus*)가 배양되어 Vancomycin을 하루에 한번 정주하였고, 두개내 초음파에서는 두개내 출혈(*Intracranial Hemorrhage*)이 관찰되었다. 수술후 9일째, 이전에 수술을 시행했던 좌측 개흉부위를 다시 열어 수술을 시행하였고, 이때 좌측 하엽과 상엽의 후측분엽에는 이미 폐경색의 징후를 보였다. 좌측 폐동맥은 이중으로 결찰되어진 상태였고, 동맥관에서는 혈류 흐름이 촉지 되었다. 수술은 결찰되어진 좌측 폐동맥을 풀어준 후에 열려있는 동맥관 결찰하는 수술을 시행하였다. 수술후 심초음파 소견에서 좌폐동맥 혈류가 잘 흐르는 것을 관찰할 수 있었고, 동맥관 개존증은 더 이상 관찰되지 않았다. 수술 4일후 혈액 검사상 WBC 10200, OT/PT 43/57, BUN

Table 1. The change of pulmonary artery pressure between preoperative and postoperative

		Preoperative (mmHg)	Postoperative (mmHg)
Case I	PAP	-	29/12(19)
	SAP	-	83/45(63)
Case II	PAP	82/37(52)	51/9(29)
	SAP	88/52(72)	95/49(68)
Case III	PAP	-	32/16(21)
	SAP	-	90/56(67)

PAP; pulmonary artery pressure, SAP; systemic artery pressure, () ; mean artery pressure

/Cr 8/0.5, Tbili 2.4로 모든 소견이 호전되는 것을 관찰할 수 있었고, 수술후 13일째 호흡기 이탈을 할 수 있었다. 수술후에 시행한 폐관류 검사상에서 좌측폐의 혈류가 증가된 것을 관찰할 수 있었다(Fig. 1). 그러나 환아는 폐렴으로 장기간 중환자실에서 집중치료를 받아오다 다시 인공호흡기 치료를 받았고, 장기간 치료 받아오다 재수술후 49일째 폐혈증으로 진행하면서 52일째에 사망하였다.

증 례 2

환아는 임신 34주에 1960g인 미숙아로 자연분만으로 출생하여, 심한 호흡부전으로 hyaline membrane disease(HMD) 진단하에 인공호흡기 치료를 받던 중, 심초음파상에서 동맥관 개존증을 진단받고 동맥관 결찰술을 시행받았다고 하였다. 그러나, 수술후에도 심한 호흡부전 및 심부전 증상이 지속되었고, 수술후 심초음파상에서 2~3 mm 정도로 동맥관이 재개통된 것으로 확인되어 수술후 16일째에 본원으로 전원되었다. 본원으로 전원당시 누골하퇴축이 심하게 관찰되면서 양쪽 폐야에 심한 호흡잡음과 호기시 천명이 청진되었고, 좌상부흉골연에서 제3/6도의 심한 연속적 심잡음이 청진되었다. 동맥혈 가스 검사상에서는 pH 7.3, PaCO₂ 56.2, PaO₂ 41.8, O₂sat 72.9로 검사되었다. 단순 흉부촬영 소견에서는 우측상엽에 무기폐가 관찰되면서 좌측폐야에는 부분적인 폐기종성 소견이 관찰되고 있었다(Fig. 2). 동맥관 개존증은 심부전을 초래할만한 크기가 아니라고 생각하여, 호흡부전의 원인을 HMD의 후유증으로 인한 기관지폐 이형성증(bronchopulmonary dysplasia)로 진단하고, 이에 대해 집중적으로 치료하여 24일 동안 신생아 중환자실에서 집중치료 받고 일반병동으로 전동되어 3일 후 퇴원하였다. 이후 추적관찰 도중에도 수

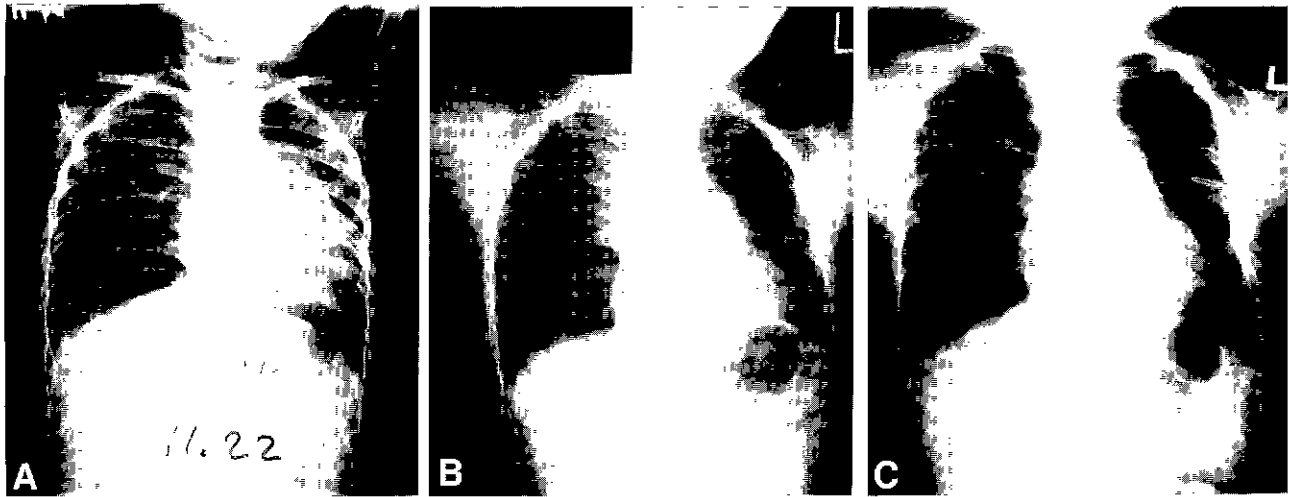


Fig. 2. Chest X-Ray in the case 2
A: preoperative, B: the first postoperative, C: the second postoperative

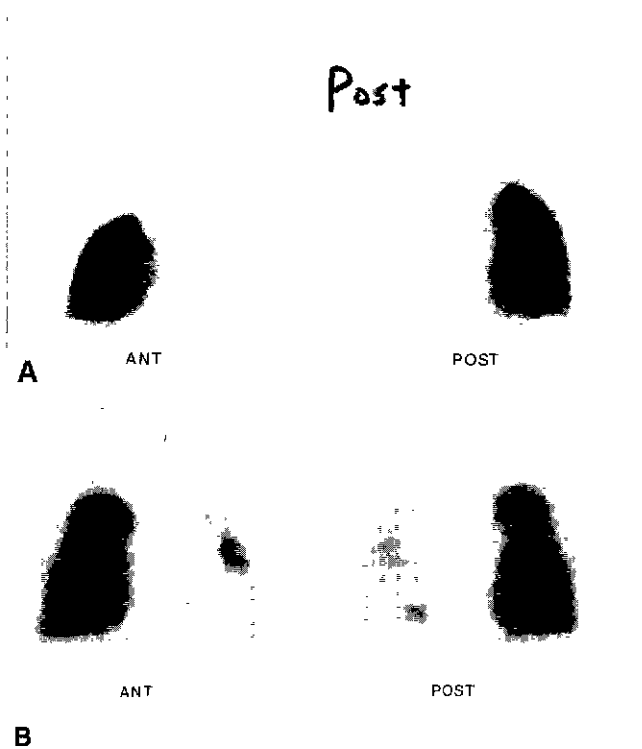


Fig. 3. Lung Perfusion Scan in the case 2
A: preoperative film B: the first postoperative film

차례의 호흡곤란으로 기관지폐 이형성증과 모세 기관지염로 중환자실에서 집중치료를 받아야 했다. 추적관찰 2년후부터 힘이 없어 보이고 안면부종이 심하게 발생하면서 심한 호흡곤란을 호소하여 입원치료를 받던 중에 폐성 심부전(Cor pulmonale)의심되어 폐관류 검사를 시행하였으나, 좌측폐야

에서 관류가 관찰되지 않았다(Fig. 3). 심초음파상에서도 우심실 확장과 주폐동맥 확장이 관찰되면서 주폐동맥에서 좌폐동맥으로의 혈류가 Doppler검사상에서 관찰되지 않아, 심혈관 조영검사를 시행하여 좌측 폐동맥의 완전한 폐색을 확인할 수 있었다(Fig. 4). 심도자 검사결과에서 혈압이 88/52(72)mmHg일 때 폐동맥압은 82/27(52)mmHg로 확인되어 심한 폐동맥 고혈압을 확인할 수 있었다(Table 1). 환이는 심혈관 조영촬영 10일 후에 좌측 후측부개흉을 이용한 주폐동맥과 좌폐동맥을 Ringed GoreTex[®] 5 mm graft를 이용하여 연결시켜 주는 수술을 시행하였다. 수술장 소견에서 심한 흉막 유착이 있었고, 좌폐동맥을 박리한 후에 이전수술에서 좌폐동맥을 결찰한 것을 확인할 수 있었고, 동맥관의 혈류흐름은 없어 보였으나 외관적으로 이전에 결찰되었던 흔적을 발견할 수는 없었다. 환이는 수술후 1일째에 호흡기 이탈을 시행하였으나, 지속적인 무기폐와 많은량의 객담 및 빈호흡으로 수술 8일째까지 중환자실 치료후에 일반병동으로 전원되었다. 수술후 심초음파 결과상에서 5 mm Ringed GoreTex[®] graft는 잘 통하고 있었다. 심혈관 조영검사상에서는 인조혈관은 잘 통하고 있었으나, 좌측 폐동맥의 원위부 혈관은 3 mm 정도였고 폐말단의 혈관은 발달되지 않았다(Fig. 4). 수술후 2년후에 시행한 심도자 검사상에서 좌폐동맥에 연결된 5 mm Ringed GoreTex[®] graft는 잘 통하고 있었으나, 우심실과 폐동맥 압력은 51 mmHg정도로 상승되어 있었고(Table 1), 좌폐동맥 원위부는 다소 커져 보였으나 폐동맥 말단의 혈관들은 여전히 발달이 안된 상태로 관찰되었다(Fig. 4). 환이는 2개월후에 다시 수술을 시행받았고, 수술장 소견에서 이전 인조혈관은 내막이 형성되면서 좁아져 있어, 인조혈관과 폐동맥 주변의 모든 유착부위를 박리한 후에 이전의 인조혈관을 제



Fig. 4. Cardiac Angiogram in the case 2
A: preoperative finding, B: the first postoperative finding,
C: the second postoperative finding

거하고 8 mm GoreTex[®] 인조혈관을 이용하여 좌폐동맥을 주 폐동맥으로 확장 연결하는 수술을 시행하였다. 수술후 심초음파 소견에서 인조혈관에서 혈류가 잘 흐르는 것을 관찰할 수 있었고, 환이는 별다른 문제없이 6개월째 추적관찰중이다

증례 3

5세 남아는 임신 36주에 2700g로 정상분만으로 출생하였으나, 생후 10일경부터 심한 호흡곤란과 청색증으로 폐렴 진단하에 신생아 중환자실에 입원치료 받던 중, 심초음파상에서 동맥관 개존증이 관찰되어 동맥관을 결찰하였던 환아로 중환자실에서 집중치료후에 증상 호전되어 퇴원하였다고 하였다. 이후에도 잦은 상기도 감염증세와 폐렴으로 여러번 입원 치료를 받았으면서 지내오다. 추적관찰중에 시행한 심초음파상에서 좌폐동맥의 혈류흐름이 관찰되지 않아 심혈관조영 검사를 시행하였고, 검사상에서 우심실조영에서 좌폐동맥이 보이지않아 전원되었다. 본 원에서 시행한 심초음파상에

서는 좌폐동맥으로 혈류흐름은 관찰되지 않았고 동맥관은 폐색되어 있었다. 심혈관 조영검사상에서 우심실압력이 37/14(25) mmHg, 폐동맥압이 32/16(21) mmHg로 나타났고(Table 1), 우심실조영상에서는 좌폐동맥이 보이지 않았다. 환이는 수술후 5년째 본원에서 수술을 시행하였고, 수술장 소견으로는 동맥관의 흔적을 발견하기 어려웠으나, 주폐동맥으로부터 7mm떨어진 부위에서 좌폐동맥에 결찰되어 있는 것을 발견할 수 있었다. 좌폐동맥의 내관은 완전히 폐색되어 있었고, 폐문부위에 좌폐동맥의 크기는 6mm정도로 작은 것을 관찰할 수 있었다. 수술은 먼저 폐동맥부위를 잘 박리하여 협착 부위를 제거한 후 7mm 크기의 GoreTex[®] graft를 사용하여 양 말단을 문합하였다. 수술후 환이는 다른 문제없이 퇴원할 수 있었다. 수술후 심초음파 검사상에서 인조혈관 혈류가 잘 관찰되었고, 폐관류 검사에서 우측은 94%, 좌측은 6%로 나타났으나 3개월후에 시행한 폐관류 검사상에서는 우측 88%, 좌측은 12%로 약간 상승하는 것을 관찰할 수 있었다(Fig. 5). 환이는 현재 별다른 문제없이 외래 추적관찰중이다

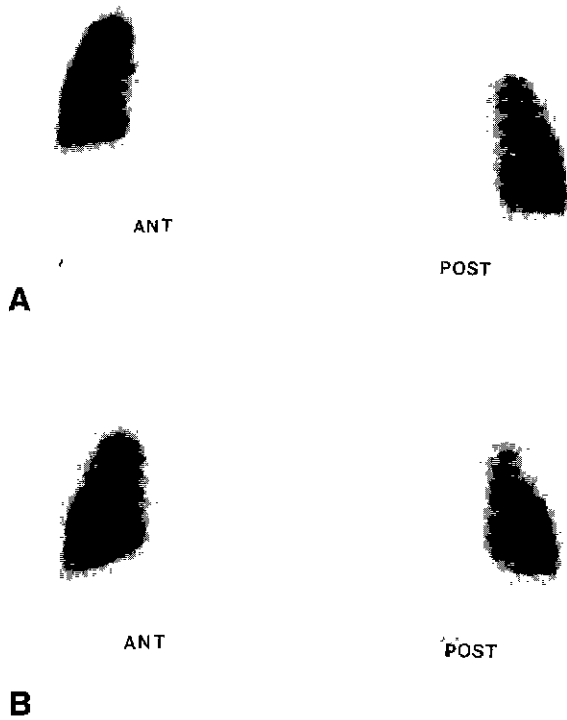


Fig. 5. Lung Perfusion scan in the case 3
A, 1 month after operation, B: 3 months after operation

고 찰

미숙이나 영아기 시기이전에 동맥관은 상당히 크게 보여 이것을 대동맥궁이 하행대동맥으로 이행되는 부위로 판단하여 좌폐동맥을 동맥관으로 잘못 인식하는 경우가 있어¹⁾, 수술시에 정확한 해부학적 구조를 관찰하여 확인해야 한다고 하였다¹⁾(Fig. 6). 좌폐동맥을 단절시킨 후에 생길 수 있는 문제점은 좌측 전폐엽절제술을 시행받은 것과 같은 효과를 나타내게 되는데, 미숙이나 신생아 초기에는 폐용적과 심장의 용적이 매우 제한적이어서 수술시 동맥관을 남겨놓은 상태에서 좌폐동맥을 결찰하는 것은 우심실에 과다한 압력 부하가 발생시켜 심한 우심부전을 초래할 수 있는 원인을 제공하게 된다. Morihito 등은 *thermodilution* 방법을 이용하여, 전 폐엽절제술후 심한 폐동맥압 상승과 폐혈관 저항의 상승이 유발되어 우심실의 기능부전을 초래하는 것을 관찰할 수 있었다고 보고하여 폐절제술후에 우심실에 발생하는 압력 부하가 우심실의 기능부전의 원인이라고 지적하였다²⁾. 그러나 Rudolph 등은 폐와 심장이 발달하여 충분한 용적을 갖추었을 경우에는 후부하의 상승이 심하지 않아 폐동맥 고혈압과 우심부전이 잘 발생하지 않는 것으로 보고하였다³⁾. 본 증례의 첫 번째 경우에선 좌폐동맥이 결찰되고 난 후 심한 심부전

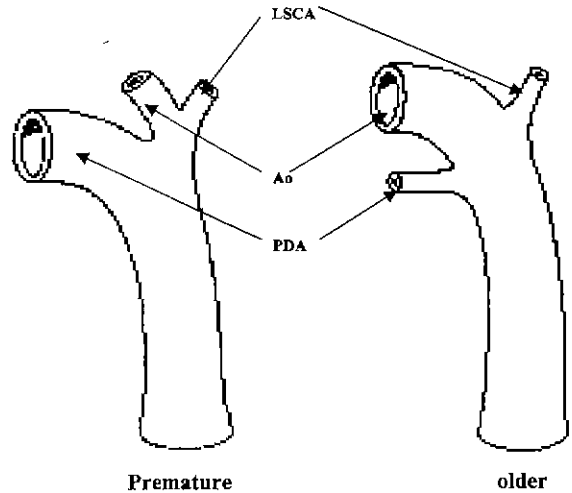


Fig. 6. Difference of anatomy between premature and child PDA; patent ductus arteriosus, Ao.: Aorta, LSCA; left subclavian artery(described by Fleming2))

으로 다발성 장기 손상의 증상을 나타냈으나, 빠른 수술적 교정으로 우심실의 후부하를 감소시켜 심장 기능의 회복을 도모할 수 있었고 다발성 장기손상으로부터 벗어날 수 있었다. 그러나, 좌폐동맥의 결찰후에 좌측폐의 하엽과 상엽의 후측분엽이 어느정도 폐경색으로 진행하면서 폐렴을 유발하였고, 폐발달의 미숙으로 장기간의 인공 호흡기 치료가 필요하면서 폐기관지 이행성증이 발생하여 호흡부전에서 회복되지 못하고, 결국 폐렴에 의한 패혈증으로 사망하게 되었다. 두 번째 증례는 좌폐동맥 결찰후에 발생한 심한 폐동맥 고혈압이 심부전의 원인을 제공하였던 경우로 수술후에 폐동맥 고혈압의 감소와 심부전 증상 호전을 관찰할 수 있었다.

Burry 등은 태생후 1.5세부터 폐의 미세한 혈관구조가 성숙되면서, 폐실질이 감소하고 폐포의 용적과 모세혈관이 발달된다고 하였고⁴⁾, Haworth 등은 갓 태어난 돼지새끼에서 좌폐동맥을 결찰한 후 주기적으로 폐의 발달을 관찰하였는데, 폐동맥이 결찰된 좌측폐에서는 폐용적과 말초 부위의 폐동맥이 작았고, 정상적인 폐포 발달이 이루어지지 않아 폐포벽이 두껍고 폐포크기가 작다고 하였다. 이처럼 폐발달이 이루어지는 3세미만에서 폐동맥의 폐쇄는 심한 폐기능의 상실로 이어지게되어 신속한 교정이 요구된다⁵⁾. 본 증례의 두 번째와 세 번째 경우는 다행히도 심한 심부전으로 진행되는 것은 피할 수 있었지만, 정확한 진단이 늦어져서 좌측폐의 정상적인 발달이 이루어지지 않아, 성장과정에서 모두 심한 호흡기질환으로 많은 병원치료를 경험해야 했고, 이미 협착이후 혈관과 폐말단부위 혈관의 발달 저하로 폐기능의 대부분

이 상실되어 수술후에도 정상적인 좌폐동맥 혈류를 회복하기 어려웠던 경우였다.

Pontius 등은 Mayo clinic에서 동맥관 개존증을 결찰 및 분리수술한 후 좌폐동맥이 결찰되어진 것을 확인할 수 있었던 10례를 모아서 증례보고한 일이 있다⁶⁾. 여기서 잘못 수술된 환자들중 조기에 발견하여 재수술을 시행하였던 경우에서는 비교적 좋은 좌폐동맥 혈류 회복을 관찰할 수 있었으나, 2주 후에 발견하여 수술받았던 환자가 폐경색에 이은 폐농양이 발생되어 패혈증으로 사망하였고, 4개월된 남아는 수술직후 발생한 심부전으로 8시간만에 1명이 사망한 것을 보고하였다. Fleming 등은 좌폐동맥을 잘못 결찰한 후 4일과 7일에 재수술을 시행하여 정상적인 좌폐쪽으로 혈류를 관찰할 수 있었고 정상적인 폐발달을 관찰할 수 있었다고 보고하였다¹⁾.

Milstein 등은 2명의 미숙아에서 동맥관 결찰술에서 좌폐동맥을 결찰한 후 지속되는 심한 심부전의 원인을 진단하지 못하여 다발성 장기 손상이 발생되어 사망한 경우를 보고하였다⁷⁾. 이처럼 동맥관 결찰술후에 수술에 대한 평가는 가능한 빠른 시기에 시행하는 것이 좋으며 환자의 증상에서 동맥관이 빠른 시기에 재개통되는 경우에는 이런 문제를 의심하고 확인하는 것이 좌폐동맥 결찰로 발생 가능한 문제를 최소화할 수 있는 방법으로 제시되어 지고있다. 본원에서는 동맥관 결찰술후 발생한 좌폐동맥의 폐색 3례를 수술적 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 증례보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Fleming WH, Sarfian LB, Kugler JD, Nelson RM. *Ligation of patent ductus Arteriosus in premature infants: Importance of accurate anatomic definition.* Pediatrics 1983; 71:373-5.
2. Okada M, Ota T, Okada M, et al. *Right ventricular dysfunction after major pulmonary resection.* J Thorac Cardiovasc Surg 1994;108:503-11.
3. Rudolph AM, Neuhauser EBD, Golinko RJ, Auld PAM. *Effect of pneumonectomy on pulmonary circulation in adult and young animals* Circ Res 1961;9:856-61.
4. Burri PH. *Postnatal development and growth.* In Crystal RG, West JB, Barnes PJ, et al. *The Lung.* New York, Raven press, 1991, pp 677-87.
5. Haworth SG, McKenzie SA, Fitzpatrick ML. *Alveolar development after ligation of left pulmonary artery in newborn pig: clinical relevance to unilateral pulmonary artery.* Thorax 1981;36:938-43.
6. Pontius RG, Danielson GK, Noonan JA, et al. *Illusions leading to surgical closure of the distal left pulmonary artery instead of the ductus arteriosus* J Thorac Cardiovasc Surg 1981;82:107-13.
7. Milstein JM, Milano EL. *A case of mistaken identity.* J Perinatol 1997;17:52-3.

=국문초록=

미숙아나 영아시기 이전의 동맥관은 해부학적인 특성상 하행대동맥으로 잘 못 인식되어 동맥관 결찰술을 시행하는 과정에서 좌폐동맥을 잘못 결찰할 수 있다. 본 원에서는 다른 병원에서 영아기에 좌폐동맥이 결찰된 후에 심부전이 발생한 경우와 폐동맥 및 좌측 폐의 결찰 원위부의 혈관과 폐포구조의 발달미숙으로 폐기능의 많은 부분을 상실한 경우에서 좌폐동맥 폐색을 수술적으로 치험하였기에 보고한다.

- 중심단어
1. 동맥관 개존증
 2. 좌폐동맥 폐쇄