

폐방선균증을 동반한 기관기관지환자 수술 치험 1례

김 흥 수* · 이 형 렬* · 정 황 규* · 이 민 기**
박 순 규** · 김 건 일*** · 이 창 훈****

=Abstract=

A Case Report of Tracheal Bronchus Associated with Pulmonary Actinomycosis

Heung Su Kim, M.D.*, Hyung Ryul Lee, M.D.*, Hwang Kiw Chung, M.D.*
Min Ki Lee, M.D.***, Soon Kew Park, M.D.***, Kun-Il Kim, M.D.***, Chang Hun Lee, M.D.****

Tracheal bronchus is a aberrant, accessory or ectopic bronchus arising almost invariably from the right lateral wall of the trachea and may be related to inflammatory conditions affecting the lung, including recurrent pneumonia and bronchiectasis. Recently we experienced a case of tracheal bronchus associated with pulmonary actinomycosis. The 37-year-old male patient had suffered recurrent hemoptysis and had been medicated as a presumptive diagnosis of tuberculosis, but neither clinical nor radiologic improvement was not seen. Right upper lobectomy was performed and pulmonary actinomycosis was confirmed by the histologic examination. Postoperatively, the patient was medicated with penicillin and ampicillin for 3 months and completely recovered without any evidence of recurrence during the 6-month followup period.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2002;35:616-20)

Key words : 1. Bronchial anomaly
2. Actinomycosis

증 례

37세 남자환자가 재발성 객혈을 주소로 부산대학교병원 내과로 내원하였다. 환자는 과거 약 20년간 중기기사로 일해

왔으며 97년 1월부터 수일간 간헐적인 객혈증세(24시간동안 10~50cc의 객혈)가 있어 타병의원을 거치면서 우상엽에 발생한 폐결핵으로 진단 받고 보건소에서 97년 5월부터 6개월간 isoniazid, rifampin, ethambutol을 복용하였으나 객혈은 호

*부산대학교 의과대학 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Pusan National University

**부산대학교 의과대학 내과학교실

Department of Internal Medicine, College of Medicine, Pusan National University

***부산대학교 의과대학 진단방사선과학교실

Department of Diagnostic Radiology, College of Medicine, Pusan National University

****부산대학교 의과대학 해부병리학교실

Department of Pathology, College of Medicine, Pusan National University

논문접수일 : 2002년 6월 10일 심사통과일 : 2002년 8월 24일

책임저자 : 김흥수(602-739) 부산시 서구 아미동 1가 10번지, 부산대학교 의과대학 흉부외과학교실. (Tel) 051-240-7267, (Fax) 051-243-9389

E-mail : kimchart@hanmail.net

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

전되지 않았고 오히려 기침, 오한, 전신쇠약 등이 나타났다. 이 치료기간 중 시행한 결핵균에 대한 객담도말 및 배양검사는 3회 모두 음성이었으며 단순 흉부X-선상 우측 폐병변이 오히려 악화되어 2개월간 항결핵제치료를 연장하였으나 호전이 없어 98년 2월 본원으로 전원되었다. 본원에 내원당시 환자는 기침, 객혈, 객담 외에 약간의 체중감소(2kg)가 있었고 이학적 검사상 우상흉부에 나음(rale)이 들렸으며 검사실소견은 모두 정상범위였다. 흡연(매일 한 갑, 20년간)과 약간의 음주복용의 과거력이 있었으며 타전신질환은 발견되지 않았다. 98년 2월 시행한 단순 흉부X-선상(Fig. 1-a) 우상엽에 폐삼출이 보였고 3회에 걸친 객담도말검사상 결핵균은 모두 음성이었으며 객담세포검사상에서도 역시 음성이었다. 약 1개월 후 재촬영한 단순 흉부X-선상 우상엽에 수개의 공동이 새로이 형성되었고(Fig. 1-b) 고해상 전산화 단층 촬영(HRCT) 결과 폐결핵이 강력히 의심되었다. 또한 기관분기점에서 약 1cm 상방에 내경 3mm의 협소한 이상기관지(기관기관지)가 관찰되었고 이로부터 1cm하방에 우상엽에 해당하는 또 다른 비교적 정상 크기의 기관지가 보였다(Fig. 2). 기관지내시경상에서도 기관분기점에서 약 1cm 상방에 이상기관지가 기시하였고 그 내강은 다소 협소해 보였고 출혈이 관찰되었으며 기관분기점에서 약 0.5cm하방에 우상엽에 해당하는 기관지가 관찰되었으나 생검상 특이 소견은 보이지 않았다(Fig. 3). 일단 1차 항결핵제에 반응 않는 내성 폐결핵으로 추정진단하에 수술을 위해 흉부외과로 전과되었고 저자들은 일단 pyrazinamide, prothionamide, cycloserine, Para-aminosalicylic acid(PAS), ofloxacin을 병용한 2차 항결핵제를 3주간 투여한 후 98년 3월 폐절제술을 시행하였다.

수술은 전신마취, 일측 폐환기하에 우하측방 개흉절개후 제5번 늑골을 절제한 늑골막상을 열고 흉강으로 접근하였다. 비교적 느슨한 흉막유착을 쉽게 박리한 후 관찰한 상엽은 하엽과 서로 유착되어 대열(major fissure)의 경계가 불분명하였으나 비교적 딱딱하고 일측 폐환기에도 허탈되지 않아 중, 하엽과의 구분은 어렵지 않았다. 먼저 폐동맥과 폐정맥분지를 모두 분리봉합하고 기관분기점으로부터 약 1cm상방에 위치한 첨구역 기관지인 기관기관지와 이로부터 1cm 하방의 전후구역기관지를 차례로 절단하는 우상엽 폐절제술을 시행하였고 흉강 상부에 잔존한 사강을 효과적으로 없애기 위해 벽측 흉막 일부를 박리하여 흉막텐트를 조성하고 흉관을 삽입한 후 수술을 마쳤다. 수일 후 조직검사결과 방선균증으로 확진되어 2차 항결핵제투여를 중단하고 매일 penicillin 200만 단위를 3주간 정주한 후 환자는 퇴원하였다. 퇴원 후에도 2개월간 추가로 매일 ampicillin 1,500mg을 경구 투여하였고 술 후 4개월간 추적결과 증상은 완전히 호전되고 재발은 보이지 않았다(Fig. 4). 절제한 우상엽에서 기관기관지를 포함

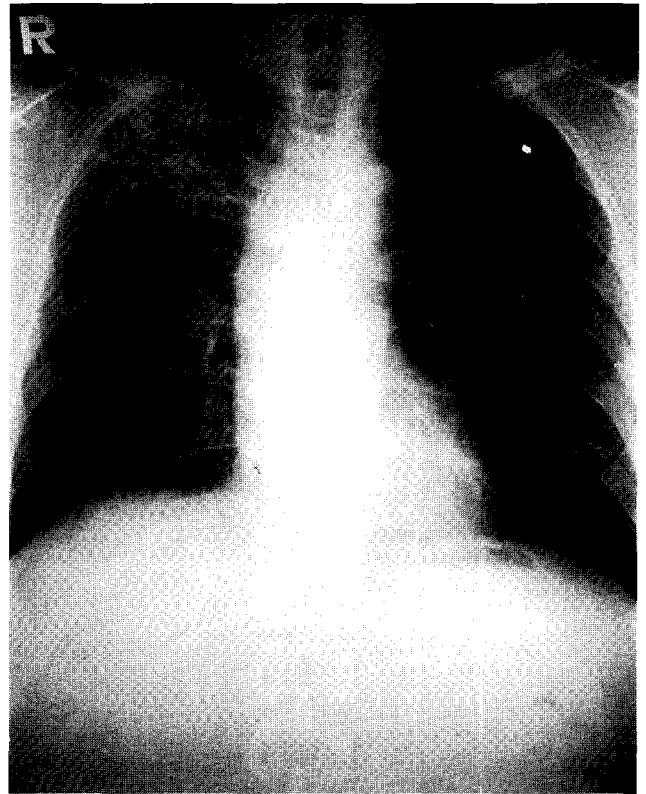


Fig.1-a. Preoperative chest X-ray shows ill defined consolidation lesion on RUL

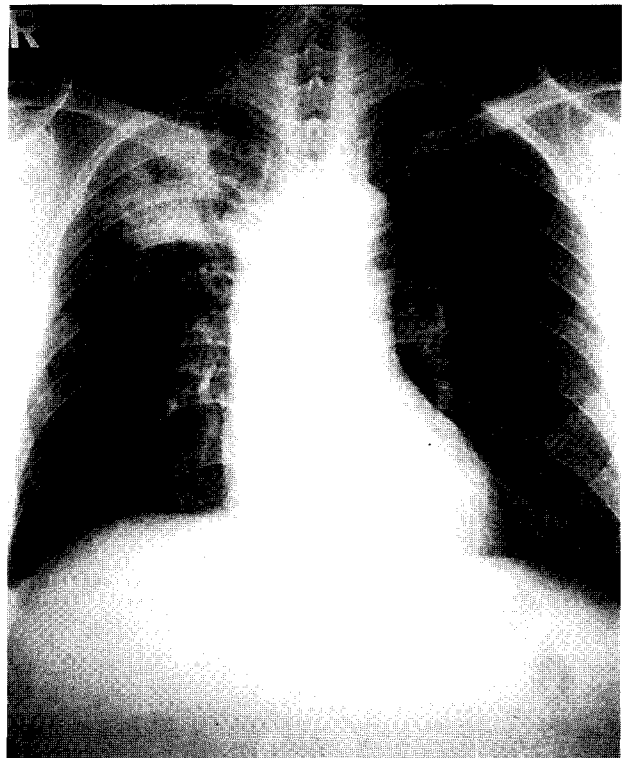


Fig.1-b. Preoperative follow-up chest X-ray after 1 month later



Fig. 2. Preoperative chest CT shows ill defined increased opacity with internal air bronchograms on RUL

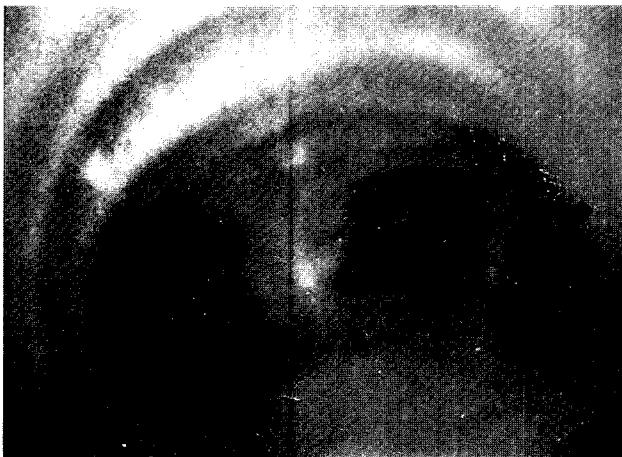


Fig. 3. Preoperative bronchoscopic finding Tracheal bronchus(arrow) is showed 1cm above carina.

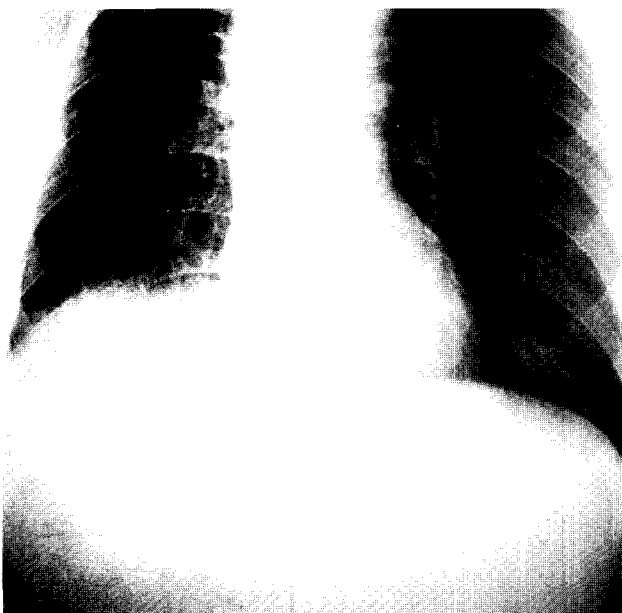


Fig. 4. Postoperative chest X-ray(6months after operation)



Fig. 5. Cut surface shows two bronchus including tracheal bronchus(arrow).

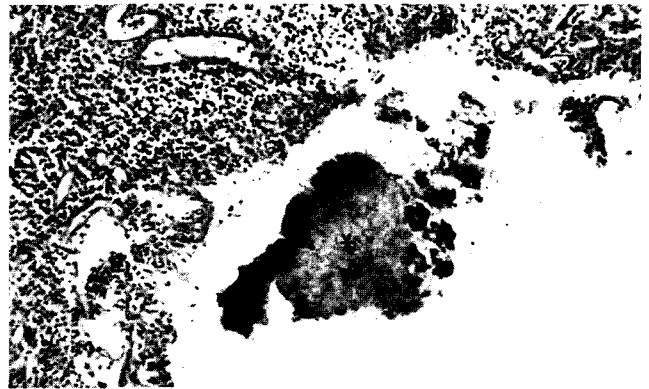


Fig. 6. Histologic finding of specimen. Sulfur granules composed of fatted network of filaments surrounded with eosinophilic clubbing material is founded(*). (PAS & methenamine silver stain. x200.)

한 두개의 기관지가 잘 관찰되었으며(Fig. 5) 조직검사상 “sulfur granule”이 우상엽 전체에 걸쳐 관찰되어 폐방선균증으로 최종 진단되었다(Fig. 6).

고 찰

기관기관지(tracheal bronchus)는 기관 우측 벽에서 기시하는 이상 혹은 부기관지를 말하고 그 빈도는 0.1~3%로 보고되고 있으며 간혹 청색증 심질환, 기관협착, 낭종성 폐질환, Down증후군 등 선천성 기형을 동반하기도 한다¹⁾. 기관기관지는 크게 과잉형(supernumerary)과 변위형(displaced)의 2가지 형태로 구분된다.¹⁾ 전자는 부기관지를 말하고 후자는 비정상적인 위치에서 기시하여 상엽의 구역, 특히 첨구역을 공급하는 것을 말한다²⁾. McLaughlin 등¹⁾은 2가지 형 이외에 이상형(aberrant)을 추가하여 Fig 7에서와 같이 우상엽기관지의 해부

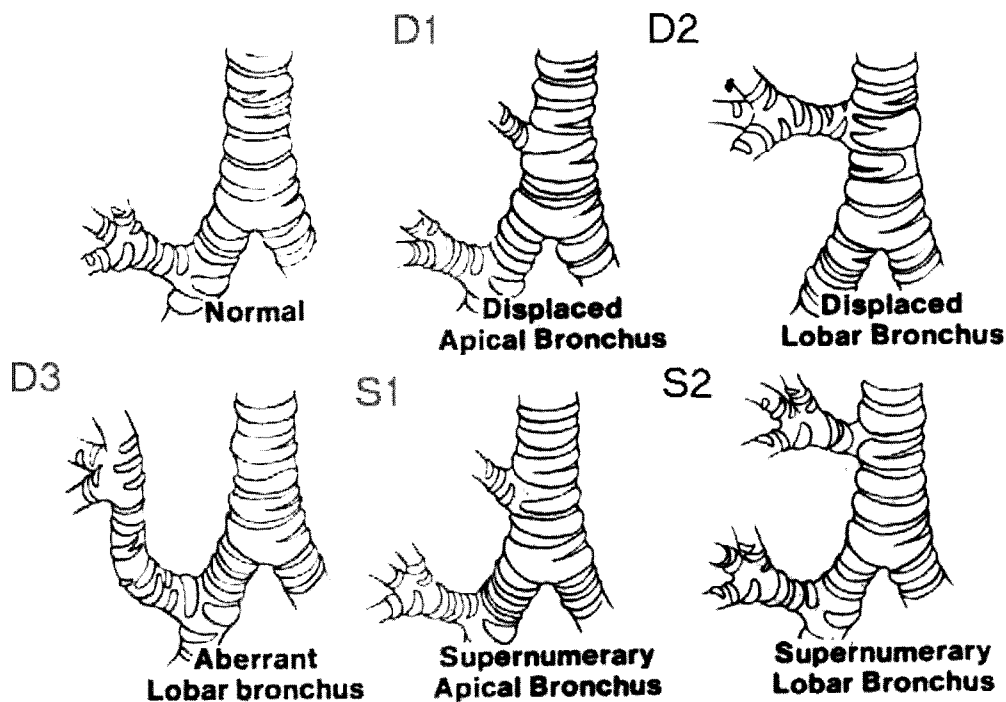


Fig. 7. Anatomical variation of Rt. upper lobe bronchus

학적 변이를 구분하였다. 기관기관지자체에 의한 증상은 없는 경우가 대부분이지만 간혹 소아에서 천명(stridor)을 유발할 수 있고 재발성 폐렴, 비폐쇄성 기관지확장증 등 염증성 폐질환이 동반될 수도 있다²⁾. 기관기관지는 기관분기점에서 2cm 상방에 흔히 위치하지만 6cm까지 상승한 보고도 있고 이런 환자에서는 기관삽관시 기관기관지를 폐쇄시켜 무기폐, 저산소혈증 등을 유발할 수 있으므로 전신마취상 주의를 요한다²⁾. 본 증례는 우상엽의 침구역을 공급하는 기관기관지가 기관분기점에서 약 1cm 상방에 따로 기시한 변위형(Fig. 7의 D1)으로 판명되었다.

방선균증은 일반적으로 *Actinomyces israelii*라는 Gram양성균에 의한 만성 염증성 질환으로 화농, 누공(sinus tract)을 형성하고 노란 "sulfur granule"을 함유한 농배출을 특징으로 하며 일반적으로 경안면부형(55%), 흉부형(15%) 및 복부골반형(20%)의 3가지 임상증후군으로 분류되고 기타 피부, 심막, 사지의 혼합형(10%)이 있다³⁾. 이중 흉부 방선균증은 구강위생상태가 불량한 환자에서 원인균이 구강인후를 통해 폐로 들어가 기관지폐렴은 물론 흉막과 흉벽을 침범하고 폐실질삼출이나 폐문임파종대가 흔히 진행된다⁴⁾. 임상증상으로 발열, 오한, 각혈, 기침, 흉막성 흉통, 체중감소, 빈혈 등이 있고 진행되면 농흉, 만성 누공, 상공정맥증후군 혹은 심삼출 등을 합병하기도 한다⁵⁾. 본 증례에서는 재발성 객혈이 특징적이었고 흉부방선균소견상 폐삼출, 폐경변 및 공동의 진행

양상을 보였으나 수술소견상 흉강, 흉벽의 침범은 보이지 않았다.

임상적으로 흉부 방선균증은 완화되지 않는 폐렴, 폐경색, nocardiosis, 결핵, 폐암, 효모균증, histoplasmosis 등과 유사하며 방사선학적 소견도 비특이적이어서 타질환과의 감별이 대단히 어렵다⁵⁾. 흉부 방선균증의 진단이 어려운 이유는 그 외 몇 가지로 설명되는데, 먼저 이 질환을 의심하기엔 희귀하고 생소하여 적합한 혐기성 배양을 하지 않을 뿐 아니라 방사선소견상 폐암과 유사하여 진단을 위한 시험개흉을 시행하는 경우가 많기 때문이다. Weese, Smith⁶⁾는 진단율이 10%이하라고 하였고 Hsieh 등⁵⁾은 14례의 보고 중 8례는 만성폐렴, 6례는 폐암으로 추정하여 전례에서 입원 중 정확한 진단을 내리지 못하였다. 확진은 Gram염색이나 배양에 의한 균동정에 좌우되지만 원인균이 정상 구강균의 일부를 형성하므로 기관지세척이나 객담을 배양하여 진단하기란 대단히 어렵고 흡인천자생검을 시도하더라도 "sulfur granule" 또는 "branching filament"지역을 정확히 채취하기 어려운 관계로 생검은 하더라도 최소한 2회 이상 시행할 것을 권하는 저자도 있다⁵⁾.

일단 방선균증으로 진단되거나 강력히 의심될 때는 적합한 항생제로 치료해야 하며 penicillin이 가장 선택약제다. 균집을 에워싼 두터운 섬유조직 때문에 penicillin의 장기투약이 필요하여 McQuame, Hau⁷⁾은 매일 200만 단위로 1~3개월간

정주하도록 권하였고 Hsieh 등⁵⁾은 처음 100~200만 단위로 수주간 정주하여 임상호전이 있으면 이후 2~3개월간 경구 투여하기를 권하였다. 만약 penicillin에 실패하거나 과민반응을 보일 경우 sulfonamides, clindamycin, tetracycline, erythromycin, chloramphenicol 등으로 대체하며 예후는 대부분 양호한 것으로 보고된다^{5,7)}.

흉부 방선균증의 외과적 조치는 진단목적으로 제한되며 폐암의 의심이 주된 수술적응증이지만 농흉, 만성누공형성, 객혈 등의 합병증이 있어도 수술이 필요하다. 누공절제, 농양, 농흉의 외과적 배농이 효과적 치료법이지만 술후 합병증이나 전파를 예방하기 위해서는 반드시 충분한 항생제치료가 병행되어야 한다⁹⁾. 또한 방선균증으로 인한 대량객혈은 극히 드물고 이때는 수술이 요구되지만 Hamer 등⁸⁾은 기관지동맥색전술에 의해 조절된 예를 보고하였다. 기관기관지환자는 재발성 우상엽 경변(consolidation) 혹은 지속적인 무기폐, 특히 기관지확장증 혹은 협착을 동반한 소아에서 수술적응이 될 수 있고¹⁾, 드물지만 선천성 낭종형 선종기형, 선천성 폐엽기종과 같은 선천성 낭종성 폐질환이 동반되어 수술한 예도 있다⁸⁾.

본 증례는 우상엽 기관지일부가 기관분기점에서 약 1cm 상방에서 기시하는 변위형 기관기관지환자로서 당초 우상엽에 발생한 폐결핵으로 추정하여 8개월간 항결핵제를 투여하였으나 증상은 완화되지 않았고 흉부 방사선상 오히려 폐병변이 악화되어 시험개흉을 시행하였다. 우상엽 폐절제시행후

조직검사에서 방선균증으로 확진되어 penicillin을 약 3개월간 추가 투여하여 객혈증상은 사라졌고 술후 약 6개월의 추적기간동안 재발을 나타내지 않았다. 기관기관지환자에서 폐방선균증이 동반된 예는 현재까지 확인된 국내의 문헌에는 기재되어 있지 않아 최초의 보고가 아닌가 사료된다.

참고 문헌

1. McLaughlin FJ, Strieder DJ, Harris GBC, Vawter GP, Eraklis AJ. *Tracheal bronchus : association with respiratory morbidity in children.* J Pediat 1985;106:751-5.
2. Ikeno S, Mitsuhashi K, Hirabayashi Y, et al. *Airway management for patients with a tracheal bronchus.* Br J Anesth 1996;76:573-5.
3. Brown JR. *Human actinomycosis.* Human Pathol 1973;4:319-3.
4. Frand R, Striedland B. *Pulmonary actinomycosis.* Br J Radiol 1974;47:373-8.
5. Hsieh MG, Liu HP, Chang JP, Chang CH. *Thoracic actinomycosis.* Chest 1993;104:366-70.
6. Weese WC, Smith IM. *A study of 57 cases of actinomycosis over a 36-year period: A diagnostic 'failure' with good prognosis after treatment.* Ann Intern Med 1975;135:1562-8.
7. McQuame DG, Hau WH. *Actinomycosis of the lung and chest wall.* Surgery 1968;64:905-11.
8. Hamer DH, Schwab LE, Gray RG. *Massive hemoptysis from thoracic actinomycosis successfully treated by embolization.* Chest 1992;101:1442-3.

=국문초록=

기관기관지는 기관우측벽에서 기시하는 이상 혹은 부기관지를 말하며 재발성 폐렴, 비폐쇄성 기관지 확장증 등 염증성 질환과 관련있다. 최근에 우리는 폐 방사균증과 관련된 기관기관지 1례를 경험하였다. 37세의 남자 환자는 재발성의 객혈을 호소하였고 당초 폐결핵으로 추정하여 항결핵제를 투여받았으나 임상적으로나 방사선학적으로 호전을 보이지 않았다. 우상엽 폐절제술이 시행되었으며 조직학적 검사에서 폐 방사균증으로 확진되었다. 술 후 환자는 3개월간 penicillin과 ampicillin이 투여됐으며 6개월간의 추적기간동안 재발을 나타내지 않고 완전히 회복되었다.

중심 단어: 1. 기관기관지
2. 폐방선균증