

특발성 기관 협착증(Idiopathic Tracheal Stenosis)의 외과적 치험

— 3예 보고 —

김 형 태* · 최 호* · 윤 유 상*

Surgical Management of Idiopathic Tracheal Stenosis

— Three case reports —

Hyung Tae Kim, M.D.*, Ho Choi, M.D.*, You Sang Yoon, M.D.*

A lower laryngeal and upper tracheal stenosis that is of idiopathic origin is occasionally seen. It is called an idiopathic tracheal stenosis. These circumferential fibrous stenosis is rare and they are most often located in the subglottic larynx and extend to varying distances predominantly in young women. Because of the unknown nature of the disease process and uncertainty about its future progression, patients were approached conservatively. Recently, surgical resection and reconstruction have been increasingly performed, as favorable results were obtained. Three female patients with dyspnea were admitted. For two patients, they were diagnosed this conditions as bronchial asthma by mistake. All patients were performed computed tomography and bronchoscopy. For two patients with subglottic stenosis, subglottic resection was performed by cervical collar incision, and for the other one patient with distal tracheal stenosis, tracheal resection was performed by right posterolateral thoracotomy. A diagnosis of idiopathic tracheal stenosis was confirmed by postoperatively pathologic finding. For one case, because of anastomosis site infection and restenosis, a whole tracheal exposure was performed by cervical collar incision and median sternotomy. And reoperation was performed successfully.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2003;36:439-443)

Key words: 1. Tracheal stenosis
2. Tracheoplasty

증례

증례 1

43세 여자 환자가 약 4년간의 노력성 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 과거력상 기관삼관, 흡입성 화상이나 기도의 외상력은 없었다. 환자는 1년 전부터 천식으로 간헐적인 약물 치료를 받아왔다. 신체검사 결과 흡기 시에 협착음이 청진되었고, 폐기능 검사의 유량기량곡선상 고정된 상기도 폐쇄의 소견을 보였으며, 내원 후 시행한 객담

acid fast bacilli (AFB)검사 결과 음성소견이 관찰되었다. 굴곡성 기관지경검사상 윤상연골 부위에 길이 1.5 cm, 내경이 5 mm로 측정되는 기관 협착소견을 보였다. 환자는 경부 칼라 절개술을 시행한 후 윤상연골의 뒷골격과 반회신경(recurrent laryngeal nerve)을 보존하기 위한 변형된 술식^{1,2)}을 이용하여 성문하 절제술 및 단단문합술을 시행 받았다. 수술 후 시행한 굴곡성 기관지경검사 결과 기관 협착소견이 사라진 것을 관찰할 수 있었고(Fig. 1), 조직학적 검사 결과 교원섬유질(collagen fibrosis)의 과증식에 의한

*아주대학교 의과대학 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Ajou University School of Medicine

논문접수일 : 2003년 1월 7일, 심사통과일 : 2003년 4월 11일

책임저자 : 최 호 (442-721) 경기도 수원시 팔달구 원천동 산 5번지, 아주대학교병원 흉부외과

(Tel) 031-219-5210, (Fax) 031-219-5215, E-mail: Choicho@ajou.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

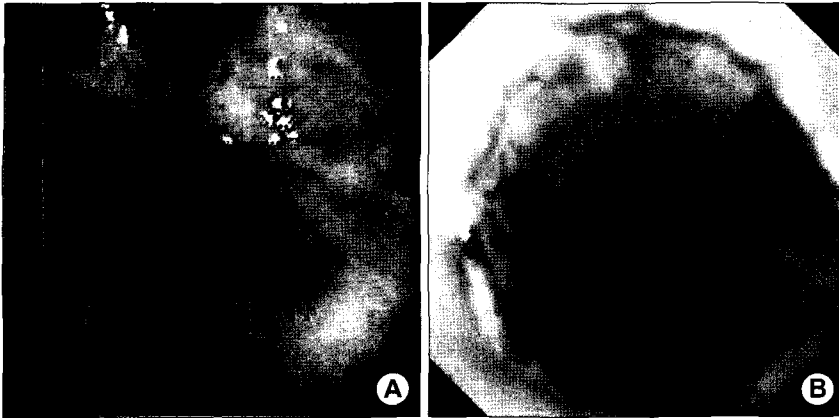


Fig. 1. Bronchoscopic views showed (A) stenosis of trachea which was 1.5 cm long and the diameter of the narrowest portion was 5 mm and (B) after resection and anastomosis, tracheal stenosis was disappeared.



Fig. 2. Microscopic examination of the resected trachea reveals extensive and dense collagen fibrosis (arrow) (H&E, 40).

기관 협착 소견을 보였다(Fig. 2). 환자는 술 후 1일째 발관(extubation) 후 술 후 10일째 퇴원하였으며, 현재 합병증 없이 외래 관찰 중이다.

증례 2

43세 여자 환자가 1주간의 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 환자는 7년 전 기관지 천식으로 진단 받았다 하며, 1년 전 급성호흡곤란으로 2차례 입원치료를 받았는데 당시 기관지 확장제에는 증상의 호전이 없었다고 하였다. 그 외에 과거력에서 특이소견은 없었다. 신체검진 결과 흡기시와 호기시 모두 천명음이 청진되었으며 폐기능 검사의 유량기량곡선상 고정된 상기도 폐쇄의 소견을 보였고, 내원 후 시행한 객담 AFB검사와 혈청 antineutrophil cytoplasmic antibody (ANCA)검사 결과 음성소견이 관찰되었다. 굴곡성 기관지경검사 결과 성문 직하방부터 길이 1



Fig. 3. Neck CT shows circumferential thickening of the subglottic area.

cm, 내경 5 mm의 기관협착 소견을 보였다. 또한 내원 후 시행한 전산화 단층촬영 결과 성문하 원형비대(circumferential thickening of the subglottic area)에 의한 협착소견이 관찰되었다(Fig. 3). 환자는 경부 칼라 절개술을 시행 후 윤상연골의 뒷골격과 반회신경을 보존하기 위한 변형된 술식^{1,2)}을 통해 성문하 기관 절제술 및 단단문합술을 받았다. 수술 후 시행한 굴곡성 기관지경 검사와 단순 X-ray 검사 결과 기관 협착소견이 사라진 것을 관찰할 수 있었고(Fig. 4), 조직학적 검사 결과 점막하 출혈이 동반된 교원섬유질의 과증식에 의한 기관 협착소견을 보였다. 환자는 수술 당일 중환자실에서 발관(extubation) 시행 후 술 후 9일째 퇴원하였으며, 현재 합병증 없이 추적관찰 중이다.

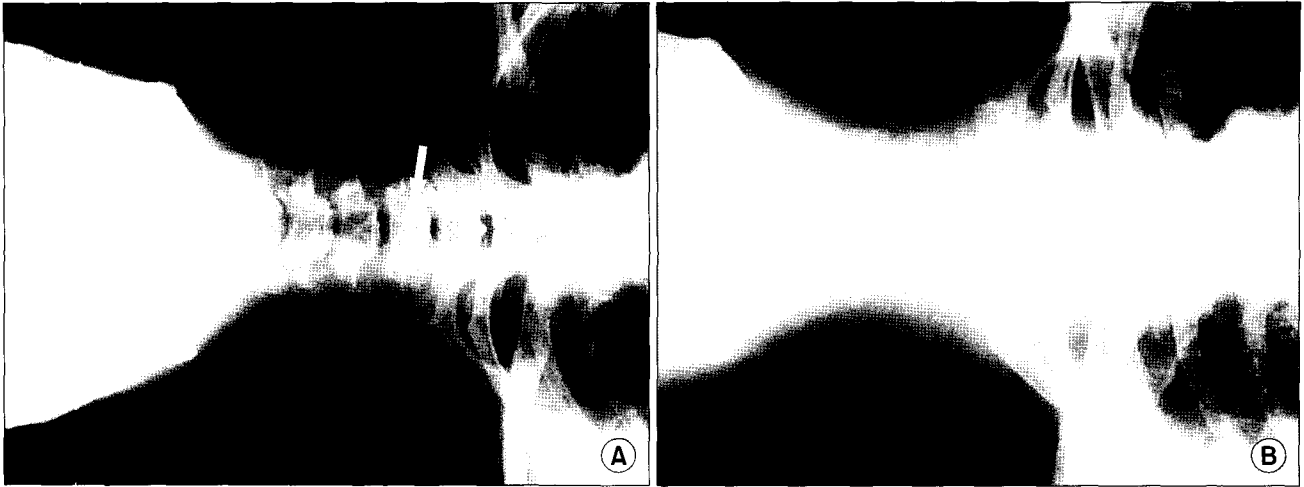


Fig. 4. X-ray showed (A) subglottic tracheal stenosis (arrow) and (B) after resection and anastomosis, tracheal stenosis was disappeared (arrow).

증례 3

특이한 외상이나 기왕력 없이 건강히 지내던 19세 여자 환자가 약 2주간의 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 내원 후 시행한 객담 AFB검사는 음성소견을 보였으며, 기관분기부 2상방부터 약 4 cm 길이의 기관협착이 관찰되었고, 가장 좁은 기관 내경은 4 mm이었다. 기관지경을 통해 풍선 확장술 및 기관 스텐트를 삽입 후 증상이 호전되어 퇴원하였으나 5개월 후 다시 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 환자는 우측 후외측 개흉술로 협착 부위의 절제 및 단문합술을 시행 받았으나 수술 2개월 후 감염과 육아조직의 과증식에 의한 문합부위의 재협착 소견을 보여 정중흉골절개 및 칼라 절개술로 협착부위를 재수술 받았다. 환자는 첫 번째 수술에서는 심낭내 폐문부유리술(Intrapericardial

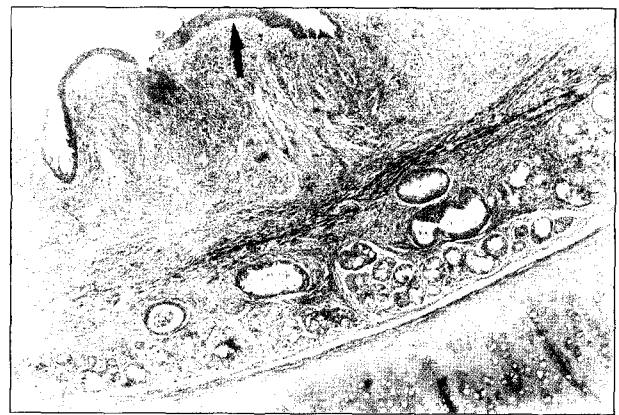


Fig. 5. Microscopic examination of the resected trachea reveals extensive and dense collagen fibrosis with some squamous metaplasia (arrow). There is no evidence of infectious process including tuberculosis or tumor (H&E, 40).

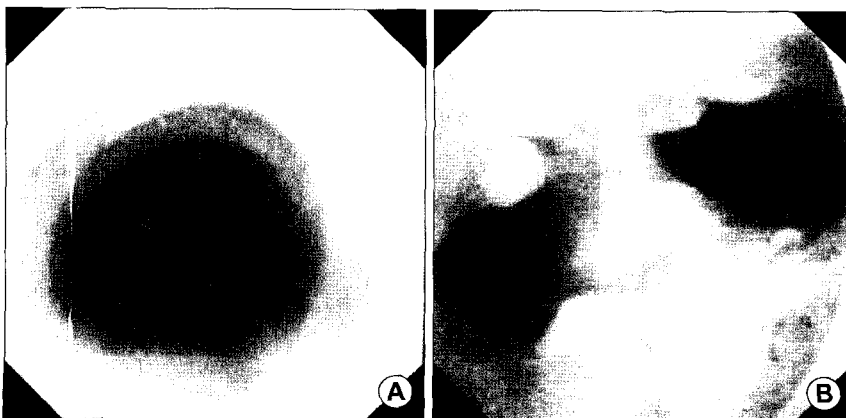


Fig. 6. Bronchoscopic views reveals (A) severe concentric stenosis of the lower tracheal lumen which was 4 cm long and the diameter of the narrowest portion was 4 mm, (B) after resection, stenosis was disappeared and both main bronchus were observed.

pulmonary hilar release)을 통해 3.5 cm 가량의 기관을 절제하였으며, 재수술 시에는 갑상연골상부 후두부유리술(suprathyroid laryngeal release)과 설골상부 후두부유리술(suprathyroid laryngeal release)을 통해 3 cm 가량을 절제해 총 6.5 cm의 기관을 절제하였다. 수술 후 시행한 조직학적 검사에서 감염이나 종양의 소견은 보이지 않았고, 점막하 육아 조직(submucosal granulation tissue)의 발달과 편평상피성 이형성(squamous metaplasia)이 동반된 교원섬유질(collagen fibrosis)의 과증식이 관찰되었다(Fig. 5). 재수술 후 시행한 굴곡성 기관지경 검사 결과 협착의 소견이 사라진 것을 관찰할 수 있었으며(Fig. 6), 환자는 현재 재협착 소견 등 합병증 없이 추적 중이다.

고 찰

기관협착증은 선천적 혹은 후천적인 원인에 의하여 유발될 수 있다. 선천적 원인에 의한 것들은 보통 어려서 그 증상이 나타나고, 반면에 후천적인 원인에 의한 것들은 오랜 기간의 기계호흡, 기관의 외상, 흡입성 화상, 방사선에 의한 것, 그리고 감염 등에 의해서 나타난다. 후천적인 기관협착증 가운데 특별한 원인 없이 생기는 경우가 있는데 이를 특발성 기관 협착증(Idiopathic tracheal stenosis)이라고 한다³⁾.

특발성 기관 협착증은 원칙적으로 협착의 원인이 없는 경우 진단할 수 있는데, 특징적인 병변의 위치, 외형, 임상적 경과, 병리학적 특징을 갖고 있다⁴⁾. 주로는 젊은 여성에서 성문하 원형성 섬유질 협착(circumferencial fibrotic stenosis)의 소견으로 잘 나타나지만, 때로는 다양한 위치에서 나타나기도 한다. 협착의 근위부는 성대하부에서 경계가 잘 지워지지 않게 시작되지만, 그 원위부는 보통 경계가 잘 지워진다. 협착의 길이에 있어서는 대체로 1.5~5.0 cm 정도이며, 협착부위 하방의 기관은 정상소견을 보인다. 또한 협착부위의 내강의 폭은 보통 5~7 mm이다⁵⁾.

임상양상은 기관삽관 후 나타나는 외상성 기관 협착과 비슷한 경과를 보이는데, 주로는 호흡이 짧아지고, 거친 호흡음, 천명 그리고 쉼 목소리 등을 나타내므로 흔히 기관지 천식으로 오진되기도 한다. 조직학적 소견으로는 상피세포의 편평상피성 이형성(squamous metaplasia)을 보이고, 점막하층의 케로이드형 교원 섬유질의 증가를 볼 수 있다. 배양검사 결과 균은 동정되지 않아야 하며, 면역학적 검사 결과 antineutrophil cytoplasmic antibody (ANCA) 음성 소견을 보인다. 또한 환자는 기관삽관, 감염, 기도의

상, 흡입성화상, 방사선조사 등의 과거력을 보이지 않고, 다연골염(Polychondritis), Wegener's granulomatosis 등과 같은 질환에서 나타나는 연골의 파괴나 호산구의 증가, 혈관염 등의 소견을 보이지 않는다⁴⁾.

이러한 특발성 기관 협착증은 드문 질환으로 문헌에 의하면 Brandenburg가 1972년 발표한 이래로 1993년 Grillo 등이 49예⁴⁾, 1992년 Pearson 등이 9예⁶⁾, Couraud 등이 5예⁷⁾를 발표하였다. Grillo 등의 발표에 의하면 49예 가운데 46예에 있어서 18세에서 70세 사이의 여성 환자였으며, 대부분은 30세에서 60세 사이였다. 증상은 진단 전 4개월에서 15년 동안 보였으며, 대부분의 환자는 1년에서 3년 사이에 증상이 나타났다. 또한 이 환자들에 있어서 자발적인 질병의 호전은 관찰되지 않았다.

특발성 기관 협착증의 진단은 다른 원인이 배제된 상태에서 위에서 언급한 특징적인 임상양상에 의해 내려지며, 연골염이나 Wegener's granulomatosis의 가능성 또한 배제되어야만 한다. 보통은 단순 X-ray촬영만으로도 병변을 볼 수 있으며, 기관지경을 통해 성대와 협착부위의 해부학적 관계와 성대 기능을 평가할 수 있다⁵⁾.

치료에 있어서 질병의 진행과정과 향후 예후가 분명히 밝혀지지 않았기 때문에 레이저 절제술이나 확장술과 같은 보존적 치료가 시행되어 왔으나⁸⁾, 점차 수술적 절제와 재건술이 많이 시행되고 있으며 또한 좋은 결과들을 보고하고 있다^{1,2,4,6)}.

이에 저자들은 3예의 여자 환자를 대상으로 성문하 기관협착을 보인 2예에 있어서는 경부 칼라 절개술을 통해, 그리고 기관 원위부 협착을 보인 1예에 있어서는 우측 후측방 개흉술 후 재협착으로 정중 흉골절개과 경부 칼라 절개술을 동시에 시행하여 성공적으로 치료하였기에 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Grill HC. Primary reconstruction of airway after resection of subglottic laryngeal and upper tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg* 1982;33:3-18.
2. Grill HC, Mathisen DJ, Wain JC. Laryngotracheal resection and reconstruction for subglottic stenosis. *Ann Thoracic Surg* 1992;53:54-63.
3. Harries PG, Mason PS, Ramsay AD, Carruth JAS. Idiopathic tracheal stenoses. *J Laryngol Otol* 1996;110:973-5.
4. Grillo HC, Mark EJ, Mathisen DJ, Wann JC. Idiopathic laryngotracheal stenosis and its management. *Ann Thorac Surg* 1993;56:80-7.

5. Grillo HC. Management of idiopathic tracheal stenosis. Ches: Surg Clin North Am 1996;6:811-8.
6. Madclaus MA, Toth JLR, Gullane PJ, Pearson FG. Subglottic tracheal resection and synchronous laryngeal resection. J Thorac Cardiovasc Surg 1992;104:1443-50.
7. Couraud L, Jougon J, Velly JF. Surgical treatment of non-tumoral stenoses of the upper airway. Ann Thorac Surg 1995;60:250-60.
8. Park SS, Streitz JM, Rebeiz EE, Shapshay SM. Idiopathic subglottic stenosis. Arch Otolarynol Head Neck Surg 1995; 121:894-7.

=국문 초록=

특별한 원인 없이 하부후두나 상부기관의 협착이 나타날 수 있는데, 이를 특발성 기관 협착증(Idiopathic Tracheal Stenosis)이라 한다. 이러한 특발성 기관 협착증은 젊은 여성에게 나타나는 성대하부의 원형섬유성 협착을 보이는 드문 질병이다. 이에 대한 치료는 질병의 원인이나 경과가 밝혀지지 않아 보존적 원칙에 따르는 것이 일반적이었으나, 최근 들어 외과적인 절제와 재건술이 많이 시행되고 있으며 좋은 결과를 보고하고 있다. 3예 모두 여성 환자로 호흡곤란을 주소로 내원하였고, 2예는 기관지천식 진단하에 수년간 내과적 치료를 받은 병력이 있었다. 모든 환자에 있어서 경부 및 흉부 전산화단층촬영과 기관지내시경으로 기관 협착증을 진단하였고, 협착의 위치에 따라 성문하 협착(Subglottic Stenosis) 2예는 경부 칼라 절개술을 통하여 성문하 절제(Subglottic resection)를 시행하였고 기관 원위부 협착 1예는 우측 후외측 개흉술을 통하여 기관절제 및 단단 문합을 시행하였으나 문합부의 감염에 의한 재협착으로 기관내 스텐트 삽입 후 경부 칼라절개와 정중흉골절개로 모든 기관을 노출한 재수술로 성공적인 치료를 하였기에 보고하는 바이다.

중심 단어 : 1. 특발성 기관 협착증
2. 기관절제