

흉부전산화단층촬영으로 진단한 성인의 선천성 기관지-식도루 - 수술치료 2예-

가톨릭대학교 의과대학 성빈센트병원1, 내과학교실2, 방사선과학교실3, 임상병리학교실4

조민섭¹⁾ · 조덕곤¹⁾ · 송소향²⁾ · 김치홍²⁾
안명임³⁾ · 정연주³⁾ · 유진영⁴⁾ · 조규도¹⁾

=Abstract=

Congenital Broncho-esophageal Fistula Diagnosed on Chest CT in Adults - 2 Cases of Surgical Treatment -

Min Seop Jo MD.¹⁾, Deog Gon Cho, MD.¹⁾, So Hyang Song MD.²⁾, Chi Hong Kim MD.²⁾,
Myeong Im Ahn MD.³⁾, Youn Joo Jung³⁾, Jin Young Yoo MD.⁴⁾ Kyu Do Cho, MD.¹⁾

¹⁾Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, ²⁾Department of Internal Medicine,

³⁾Department of Radiology, and ⁴⁾Department of Pathology, St. Vincent's Hospital,
College of Medicine, The Catholic University of Korea

Recently we successfully treated two cases of congenital bronchoesophageal fistula(BEF), communicating esophagus and right lower lobe, in adults by fistulectomy and right lower lobectomy. The fistulas were initially diagnosed on chest CT examination and confirmed by endoscopy and esophagography. The diagnosis of BEF is usually made by barium esophagography, esophagoscopy, and bronchoscopy. Although congenital BEF presented in adult life is a rare disorder, careful examination of chest CT films would disclose more cases of it, we think, than expected.

Key Word : Congenital Broncho-esophageal Fistula(BEF), Chest CT, Fistula

I. 서 론

성인에서 발견되는 선천성 기관지식도루는 반복되는 호흡기증상을 동반하고 수분섭취 후 발작적인 기침을 하는 등의 특징을 가지고 있지만 흔히 진단이 제대로 이루어지지 않아 원인 치료가 늦어지는 경우가 많다. 저자들은 흉부전산화 단층촬영으로 조기에 기관지식도루를 확진하여 수술적 치료를 성공리에 마쳤기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

교신저자 : 조규도, 440-060, 경기 수원시 팔달구 지동 93
가톨릭대학교 성빈센트병원 흉부외과
전화 : 031-249-7200 FAX : 031-251-1755
E-mail : kyudockd@vincent.cuk.ac.kr

II. 증례 1

환자는 52세 된 여자로 20대 후반부터 음식물 흡인 후 발작적인 기침 증상이 있었으며 본원 내과에서 우폐하엽 기관지확장증의 진단하에 간헐적으로 외래 치료받아 오다가 우폐하엽의 Klebsiella 폐렴으로 입원 치료중 흉부 전산화 단층촬영(Fig. 1)결과 기관지식도루가 발견되었으며, 이의 확인을 위하여 식도내 시경(Fig. 2)과 식도조영술로 식도와 우폐하엽 상구 사이의 루공을 확진하여 흉부외과에 의뢰되었다. 과거력 상 빈번한 우폐의 폐렴을 앓았으며 4년 전에는 우폐하엽의 폐렴 원인균으로 Enterobacteriaceae가 검출된 적도 있었다. 식도 내시경 검사 상 문치 하부

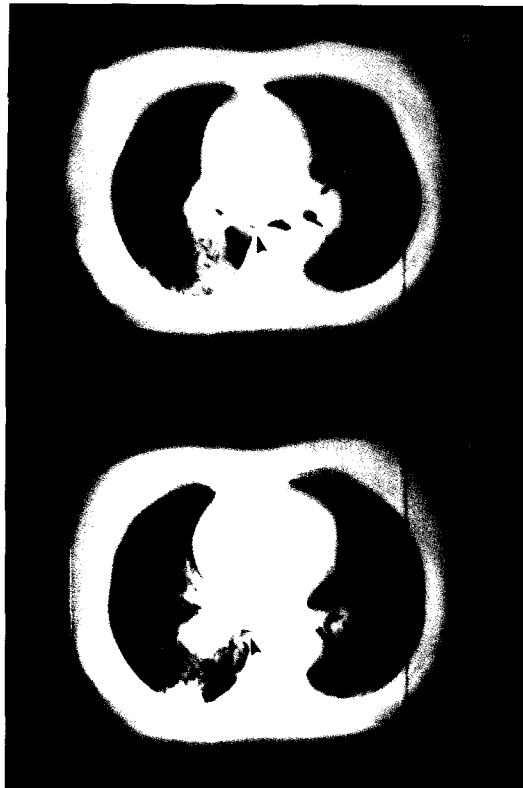


Fig. 1. Computed tomographic scan showing fistulous tract (arrow heads) coursing at different cut-section levels (over 4 levels of 7 mm cut section), which was thought to be a single-tracted fistula.

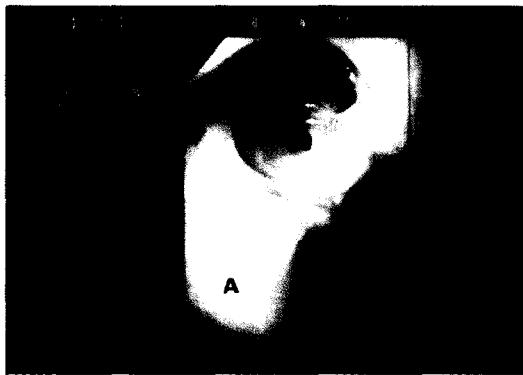


Fig. 2. Esophagoscopic finding showing small esophageal diverticulum which contains two fistulous openings. The diverticulum was found to be located at 2 o'clock position anterolaterally to rightward (A : anterior wall, B : posterior wall)

30cm 위치에서 2시 방향의 우측방에 작은 식도계실이 있었고 그 안에 분리된 이중 루공을 형성하고 있었다. 기관지경검사에서는 우폐 중, 하엽 기관지 점막의

비특이성 만성 염증 소견이외의 특별한 소견은 없었다. 수술 전 폐기능 검사상 FEV1 1.56 L(정상 예측치의 69%), FEF25-75% 1.19L(정상예측치의 44%) 의 소기관지 폐색 소견이 관찰되었다.

수술은 일측폐환기 기관삽관 전신마취하에 우측 후측방개흉술을 시행하였다. intermediate bronchus이하 부위의 우폐하엽 후, 측방으로 심한 유착 소견이 보였고 중부 식도 하부에 직경 1.5 cm, 길이 2.5 cm 크기의 단일 루관이 우폐하엽 상구와 연결되어 있었고 특별한 공급혈관은 없었다. TEA 봉합기를 이용하여 식도계실을 포함한 루관 절제술을 시행하고 식도 근총을 단순봉합한 후 우폐하엽 절제술을 시행하였다. 기관지식도루는 식도쪽에서는 이중 루관의 양상이던 것이 폐쪽에서는 단일 루관으로 형성되어 있었으며 외양은 단일 루관의 형태를 하고 있었다.

수술 후 조직검사 결과는 편평상피로 피복된 누공에 균육층이 존재하여 Braimbridge type I의 선천성 기관지식도루였고 우폐하엽은 다발성 농양이 형성된 기관지 확장증의 소견을 보였다.

수술 후 임상경과는 양호하였다. 수술 후 제 3일째 식도조영술을 시행하여 누출이 없는 것을 확인하고 경구 섭식을 시작하였고 식도내시경 검사상 이전에 보였던 누공이 폐쇄된 것을 확인한 후 수술 후 제 9일에 퇴원하였다. 환자는 퇴원 후 3년간 증상의 재발 없이 건강히 지내고 있다.

III. 증례 2

환자는 49세 된 남자로 20대 초반에 군 입대하였을 때부터 부터 음식물 흡인 후 발작적인 기침 증상이 있었으며 3주일 전부터 심해진 기침과 객담을 주소로 본원 내과 외래를 방문하였다. 역시 흉부전산화 단층 촬영(Fig. 3) 결과 기관지식도루가 진단되었으며, 식도내시경(Fig. 4)과 식도조영술로 식도와 우폐하엽 상구 사이의 루공을 확진하여 흉부외과에 의뢰되었다. 식도내시경 검사 상 문치 하부 35cm 위치에서 2시 방향의 우측방에 루공이 확인되었으며 검사 중 공기 기포가 루공에서 나오는 것이 확인되었다. 수술 전 기관지경 검사 상 우폐 중하엽 기관지의 만성 염증 외의 특이소견은 없었으며 폐기능 검사는 정상이었다.



Fig. 3. Computed tomographic scan showing fistulous tract (arrow head) between the esophagus and right lower lobe.

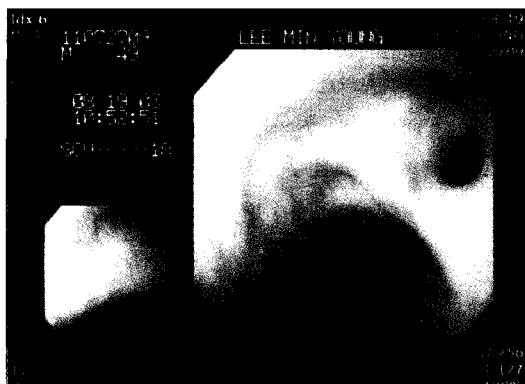


Fig. 4. Esophagoscopic finding showing fistulous opening at 2 o'clock location in the esophagus.

수술은 일측폐환기 기관삽관 전신마취하에 우측 후측방개흉술을 시행하였다. 우폐하엽 후, 측방으로 중등도의 유착 소견이 보였고 하부 식도 상부에 직경 1 cm, 길이 1.5 cm 크기의 단일 루관이 우폐하엽 상구기관지와 연결되어 있었고 특별한 공급혈관은 없었다. 흉강경용 GIA 봉합기로 루관 절제술을 시행한 후 우폐하엽 절제술을 시행하였다.

수술 후 조직검사(Fig. 5) 결과 상 기관식도루 상피층은 편평상피로 구성되어 있었고 근육층을 확인할 수 있어 Braimbridge type II의 선천성 기관지식도루였다. 절제된 우폐는 특히 상구와 후저구에 국한된

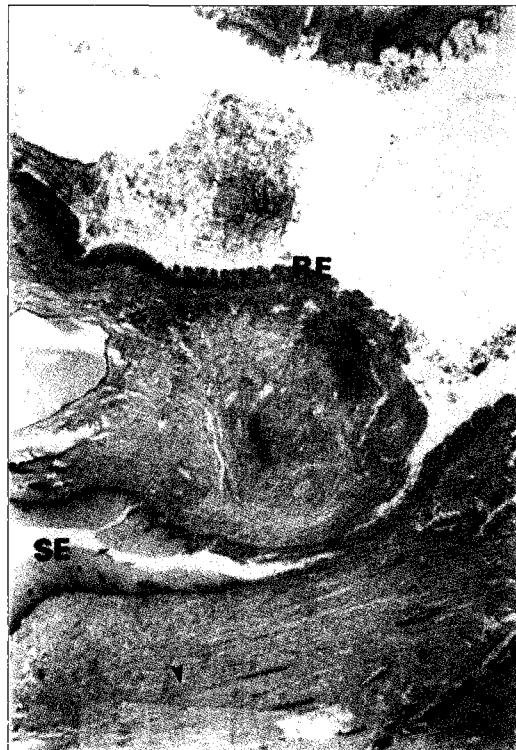


Fig. 5. The microscopic finding of a bronchoesophageal fistulous tract. (RE : respiratory lining epithelium, SE : squamous epithelium of the fistula, Arrow head : muscle structure of the fistula), H-E stain, X125.

기관지확장증 소견을 보였다.

수술 후 임상경과는 양호하였고 수술 후 제 2일째부터 경구 섭식을 시작하였고 수술 후 제 10일 째 퇴원하였다. 수술 후 식도내시경 검사는 시행하지 않았으나 퇴원 후 식도 조영술 상 정상소견을 확인하였다. 환자는 현재 특별한 증상 없이 퇴원 후 3개월 째 외래 관찰 중이다.

IV. 고 칠

호흡기-식도루는 선천성, 외상성, 혹은 악성종양 등에 의해 발생될 수 있으며 그 종 식도 폐쇄를 동반하지 않는 선천성 식도-기관지루는 드문 질환이며 증상의 발현이 잠행성으로 진행되어 성인에서 진단되는 경우가 많다. 성인에서 발견되는 선천성 식도-기관지루는 다른 선천성 기형과는 잘 동반되지 않는 반면에 오랫동안 만성적인 음식물 흡인에 따른 만성 폐렴

증세와 만성 폐쇄성 폐질환, 기관지 확장증을 동반하는 경우가 많다.

성인에서의 식도-기관지루는 국내문헌에서는 10편 이상의 증례보고^{1,2)}가 있고 염호기 등³⁾이 국내에서 보고된 증례와 저자들의 증례를 합해 35례에 대한 후향분석을 하였다. 해외문헌에서는 Risher 등⁴⁾이 100례에 대해서 metaanalysis를 하였고, 김주현 등⁵⁾은 저자들이 경험한 13례에 대한 후향분석 보고를 하여 드물기는 하지만 아주 희귀한 질환은 아니다. 진단은 식후 발작적인 기침과 반복되는 폐렴이 있는 환자에서 호흡기-식도루를 의심하여 검사를 하게 되는데 김주현 등⁵⁾은 13례 중 11례(85%)의 환자에서 식도조영술로 진단하였고 그 중 8명에서 수술 전 식도내시경을 하여 5명에서 누공을 확인하였고 염호기 등⁴⁾은 35례 중 31례(89%)에서 식도조영술로 진단을 하였다고 보고하였다. 일반적으로 식도내시경 검사가 식도조영술보다 덜 예민하며 기관지경검사로는 누공의 위치를 확인하기 힘들다고 알려져 있다. 성인에서 발견되는 선천성 기관지식도루의 발병빈도가 적기 때문에 진단방법에 대한 자세한 보고는 드물지만 후천성 기관지식도루의 경우 흉부전산화 단층촬영에서 진단되었다는 보고도 있다.⁶⁾

기관지식도루의 기관지쪽 개구부위는 우하엽이 41~76.5%로 가장 많고 그 다음이 좌하엽(17.6~21%)이고 그외에 주기관지, intermediate bronchus의 순서였다.^{3)~5)}

외과적인 수술방법은 비교적 간단하여 폐의 합병증이 없는 경우 단순 누공절제술만 하여도 무방하고 폐의 합병증이 병발되어 있는 경우에는 폐구역 혹은 폐엽절제술을 시행할 수 있겠으나 폐합병증이 심한 경우 전폐절제술이 필요한 경우도 있으므로³⁾ 기관지식도루의 조기발견이 수술 후 환자의 삶의 질과 밀접한 관계가 있다고 생각된다.

성인에서 발견되는 선천성 기관지식도루는 반복되는 호흡기증상을 동반하고 수분섭취 후 발작적인 기침을 하는 등의 특징을 가지고 있지만 흔히 간과되어

원인 치료가 늦어지는 경우가 많다. 이때 흉부전산화 단층촬영은 식도조영술이나, 식도내시경검사 없이도 기관지식도루를 확진할수 있는 좋은 진단도구가 될 수 있다고 생각된다. 저자들은 흉부전산화단층촬영 상 기관지식도루가 확진된 2명의 성인환자에서 식도조영술과 식도내시경으로 확인후 수술적 치료로써 좋은 결과를 얻었기에 보고하는 바이다.

References

1. Hur Y, Kang KH, Moon KH, et al. : Congenital esophago-bronchial fistula without esophageal atresia : report of 6 cases, Korean J Thorac Cardiovasc Surg. 1988;21:594~600.
2. Kim BR, Oh TY, Chang WH : Congenital esophago-bronchial fistula without esophageal atresia in the adult:a case report, Korean J Thorac Cardiovasc Surg. 1995;28:431~5.
3. Yum HK, Choi SJ, Kim DS : Congenital bronchoesophageal fistula of adult in Korea, Tuberculosis and Respiratory disease, 1997;44:907~13.
4. Risher WH, Arensman RM, Ochsner JL : Congenital bronchoesophageal fistula, Ann Thorac Surg 1990;49:500~5.
5. Kim JH, Park KH, Sung SW, Rho JR, : Congenital bronchoesophageal fistulas in adult patients, Ann Thorac Surg 1995;60:151~5.
6. Kassis ES, Belani CP, Ferson PF, et al. : Hodgkin's disease presenting with a bronchoesophageal fistula, Ann Thorac Surg 1998;66:1409~10.