

폐방성균증을 동반한 기관기관지 환자 수술 치험 1예

양승인* · 이형렬* · 박준호* · 이민기** · 박순규** · 김건일*** · 이창훈****

A Case Report of Tracheal Bronchus Associated with Pulmonary Actinomycosis

Seung In Yang, M.D.*, Hyung Ryul Lee, M.D.*, Jun Ho Park, 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 an 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, 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 either clinical or 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 follow-up period.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2003;36:878-882)

- Key words:** 1. Bronchial anomaly
2. Actinomycosis
3. Lung infection
4. Bronchi

증례

37세 남자 환자가 재발성 각혈을 주소로 부산대학교병원 내과로 내원하였다. 환자는 과거 약 20년간 중장기 기사로 일해 왔으며 97년 1월부터 수일간 간헐적인 각혈증세(24시간 동안 10~50 cc의 각혈)가 있어 타 병의원을 거치면서 위상염에 발생한 폐결핵으로 진단 받고 보건소에 서 97년 5월부터 6개월간 isoniazid, rifampin, ethambutol을

복용하였으나 각혈은 호전되지 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 항결핵제 치료를 연장하였으나 호전이 없어 98년 2월 본원으로 전원되었다. 본원 내원 당시 환자는 기침, 각혈, 객담 외에 약간의 체중감소(2 kg)가 있었고 이학적 검사상 위상흉부에 나음(rale)이 들렸으며 검사실 소견은 모두 정

*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 : 2003년 6월 16일, 심사통과일 : 2003년 9월 5일

책임저자 : 이형렬 (602-739) 부산광역시 서구 아미동 1가 10번지, 부산대학교병원 흉부외과

(Tel) 051-240-7268, (Fax) 051-243-9389, E-mail: hrlee@pusan.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

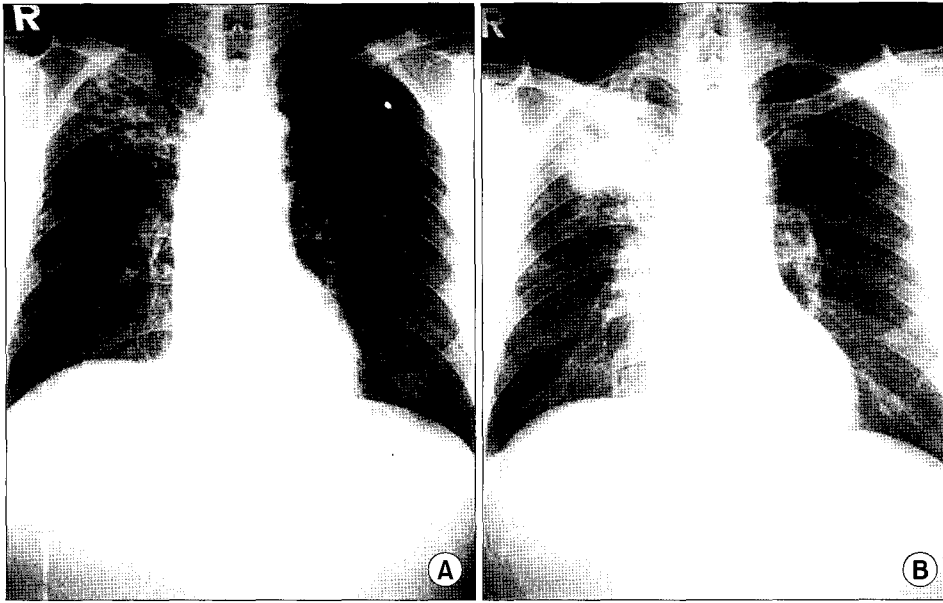


Fig. 1. (A)=Preoperative chest X-ray shows ill defined consolidation lesion on RUL; (B)=Preoperative follow-up chest X-ray after 1 month later.

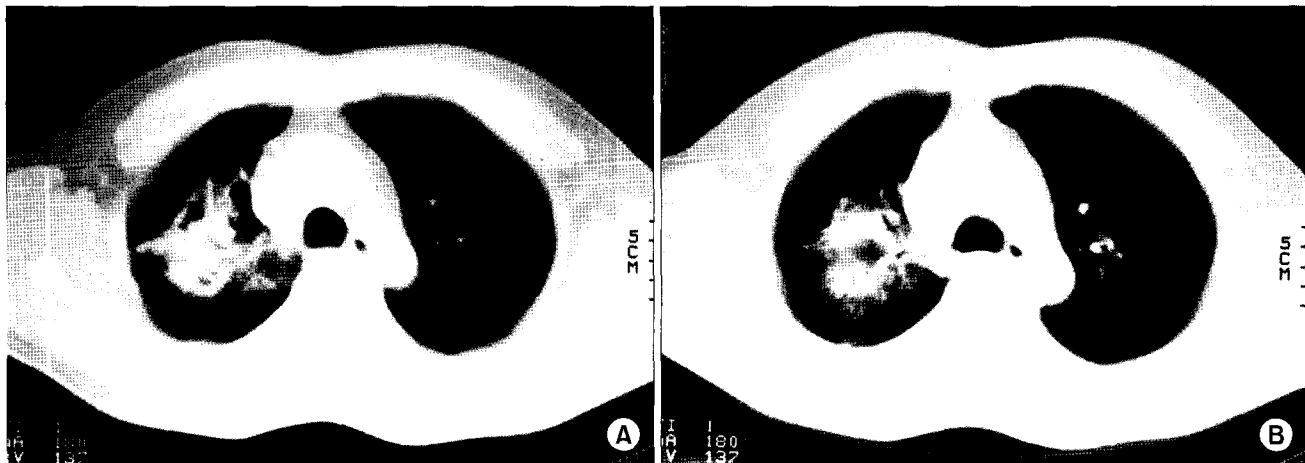


Fig. 2. (A)=Preoperative chest CT; (B)=Preoperative chest CT shows ill defined increased opacity with internal air bronchograms on RUL.

상범위였다. 객연(매일 한 갑, 20년 간)과 약간의 음주복용의 과거력이 있었으며 타 전신질환은 발견되지 않았다. 88년 2월 시행한 단순 흉부X-선상(Fig. 1A) 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. 1B) HRCT 촬영결과 폐결핵이 강력히 의심되었다. 또한 기관분기점에서 약 1 cm 상방에 협소한(내경 : 3 mm) 이상기관지(기관기관지)가 관찰되었고 이로부터 1 cm 하방에 우상엽에 해당하는 또 다른

비교적 정상 크기의 기관지가 보였다(Fig. 2). 기관지내시경상에서도 기관분기점에서 약 1 cm 상방에 이상기관지가 기시하였고 그 내강은 다소 협소해 보였고 출혈이 관찰되었으며 기관분기점에서 약 0.5 cm 하방에 우상엽에 해당하는 기관지가 관찰되었으나 생검상 특이 소견은 보이지 않았다(Fig. 3). 일단 1차 항결핵제에 반응하지 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

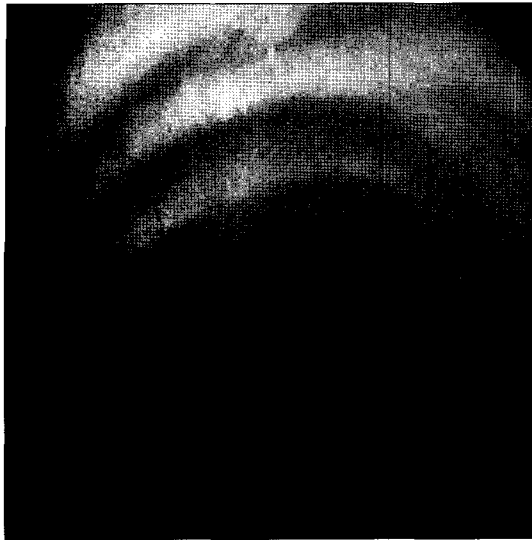


Fig. 3. Preoperative bronchoscopic finding. Tracheal bronchus is showed 1cm above carina.



Fig. 4. Postoperative chest X-ray.

시행하였다.

수술은 전신마취, 일측 폐환기하에 우하측방 개흉절개 후 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

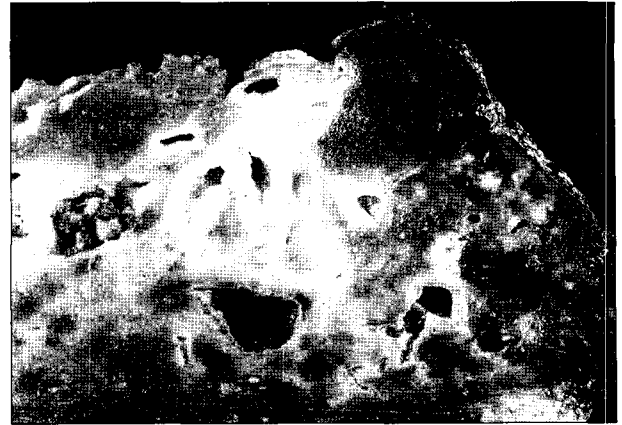


Fig. 5. Cut surface shows two bronchus including tracheal bronchus.

허탈 되지 않아 중, 하엽과의 구분은 어렵지 않았다. 먼저 폐동맥과 폐정맥분지를 모두 분리봉합하고 기관분기점으로부터 약 1 cm 상방에 위치한 기관기관지(첨구역기관지)와 이로부터 1 cm 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 항결핵제 투여를 중단하고 매일 penicillin 200만 단위를 3주간 정주한 후 환자는 퇴원하였다. 퇴원 후에도 2개월간 추가로 매일 ampicillin 1,500 mg을 경구 투여하였고 술 후 4개월간 추적결과 증상은 완전히 호전되고 재발은 보이지 않았다(Fig. 4). 절제한 우상엽에서 기관기관지를 포함한 두 개의 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, Down 증후군 등 선천성 기형을 동반하기도 한다 [1]. 기관기관지는 크게 과잉형(supernumerary)과 변위형(displaced)의 2가지 형태로 구분된다[1,2]. 전자는 부기관지를 말하고 후자는 비정상적인 위치에서 기시하여 상엽의 구역, 특히 첨구역을 공급하는 것을 말한다. McLaughlin

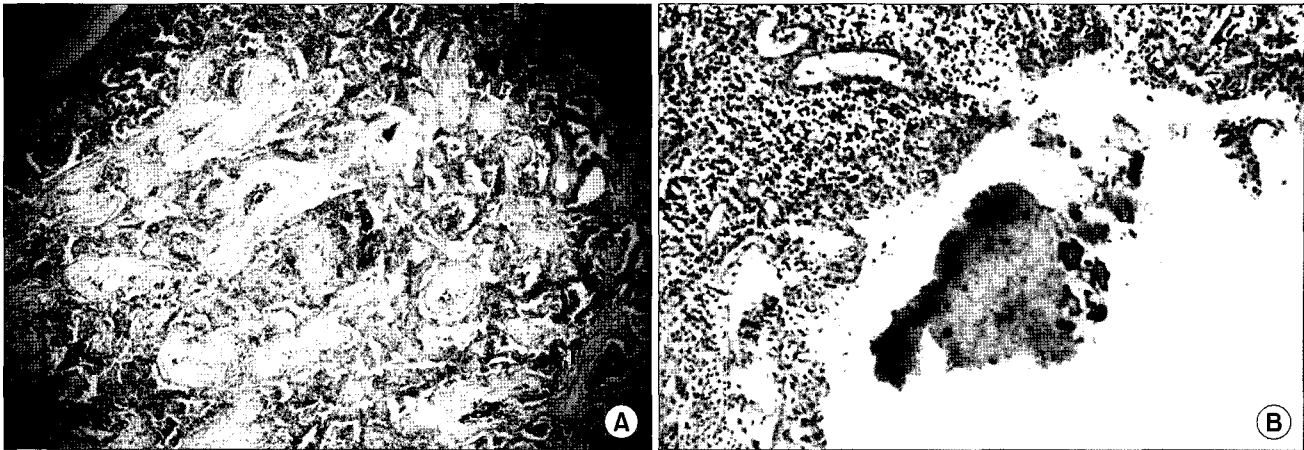


Fig. 6. (A)=Histologic finding of specimen; (B)=Histologic finding of specimen. Sulfur granules composed of fatted network of filaments surrounded with eosinophilic clubbing material is founded. (PAS & methenamine silver stain. $\times 200$).

등[1]은 2가지 형 이외에 이상형(aberrant)을 추가하여 위상엽기관지의 해부학적 변이를 구분하였다. 기관기관지 자체에 의한 증상은 없는 경우가 대부분이지만 간혹 소아에서 전명(stridor)을 유발할 수 있고 재발성 폐렴, 비폐쇄성 기관지확장증 등 염증성 폐질환이 동반될 수도 있다. 기관기관지는 기관분기점에서 2 cm 상방에 흔히 위치하지만 6 cm까지 상승한 보고도 있고 이런 환자에서는 기관삼관시 기관기관지를 폐쇄시켜 무기폐, 저산소혈증 등을 유발할 수 있으므로 전신마취상 주의를 요한다. 본 증례는 위상엽의 침구역을 공급하는 기관기관지가 기관분기점에서 약 1 cm 상방에 따로 기시한 변위형으로 판명되었다.

방사균증은 일반적으로 *Actinomyces israelii*라는 Gram 양성균에 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 있다. 이중 흉부 방사균증은 구강위생상태가 불량한 환자에서 원인균이 구강인후를 통해 폐로 들어가 기관지폐렴은 물론 흉막과 흉벽을 침범하고 폐실질 삼출이나 폐문임파종대가 흔히 선행된다. 임상증상으로 발열, 오한, 각혈, 기침, 흉막성 흉통, 체중감소, 빈혈 등이 있고 진행되면 농흉, 만성 누공, 상공정맥증후군 혹은 심낭삼출 등을 합병하기도 한다. 본 증례에서는 재발성 각혈이 특징적이었고 흉부방사선소견상 폐삼출, 폐경변 및 공동의 진행양상을 보였으나 수술소견상 흉강, 흉벽의 침범은 보이지 않았다.

임상적으로 흉부 방사균증은 완화되지 않는 폐렴, 폐경

색, nocardiosis, 결핵, 폐암, 효모균증, histoplasmosis 등과 유사하며 방사선학적 소견도 비특이적이어서 타 질환과의 감별이 대단히 어렵다. 흉부 방사선균증의 진단이 어려운 이유는 그 외 몇 가지로 설명되는데, 먼저 이 질환을 의심하기엔 희귀하고 생소하여 적합한 배양(협기성)을 하지 않을 뿐 아니라 방사선소견상 폐암과 유사하여 진단을 위한 시험개흉을 시행하는 경우가 많기 때문이다. Weese, Smith[3]는 진단율이 10% 이하라고 하였고 Hsieh 등[4]은 14예의 보고 중 8예는 만성폐렴, 6예는 폐암으로 추정하여 전예에서 입원 중 정확한 진단을 내리지 못하였다. 확진은 Gram 염색이나 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 있다[4].

일단 방사균증으로 진단되거나 강력히 의심될 때는 적합한 항생제로 치료해야 하며 penicillin이 가장 좋은 선택약제다. 균집을 에워싼 두터운 섬유조직 때문에 penicillin의 장기투약이 필요하여 McQuame, Hau[5]은 매일 200만 단위로 1~3개월간 정주하도록 권하였고 Hsieh 등[4]은 처음 100~200만 단위로 수주간 정주하여 임상호전이 있으면 이후 2~3개월간 경구투여하기를 권하였다. 만약 penicillin에 실패하거나 과민반응을 보일 경우 sulfonamides, clindamycin, tetracycline, erythromycin, chloramphenicol 등으로 대체하며 예후는 대부분 양호한 것으로 보고된다.

흉부 방사균증의 외과적 조치는 진단목적으로 제한되

며 폐암의 의심이 주된 수술적응증이지만 농흉, 만성누공형성, 각혈 등의 합병증이 있어도 수술이 필요하다. 누공절제, 농양, 농흉의 외과적 배농이 효과적 치료법이지만 수술 후 합병증이나 전파를 예방하기 위해서는 반드시 충분한 항생제 치료가 병행되어야 한다. 또한 방선균증으로 인한 대량각혈은 극히 드물고 이 때는 수술이 요구되지만 Hamer 등[6]은 기관지동맥색전술에 의해 조절된 예를 보고하였다. 기관지기관지환자는 재발성 우상엽 경변(consolidation) 혹은 지속적인 무기폐, 특히 기관지확장증 혹은 협착을 동반한 소아에서 수술적응이 될 수 있고[1], 드물지만 선천성 낭종형 선종기형[6], 선천성 폐엽기종[7]과 같은 선천성 낭종성 폐질환이 동반되어 수술한 예도 있다.

본 증례는 우상엽 기관지일부(첨구역 기관지)가 기관분기점에서 약 1 cm 상방에서 기시하는 변위형 기관기관지환자로서 당초 우상엽에 발생한 폐결핵으로 추정하여 8개월간 항결핵제를 투여하였으나 증상은 완화되지 않았고 흉부 방사선상 오히려 폐병변이 악화되어 시험개흉을 시행하였다. 우상엽 폐절제 후 조직검사서 방선균증으로 확진되어 penicillin을 약 3개월간 추가 투여하여 각혈증상은 사라졌고 술 후 약 6개월의 추적기간 동안 재발을 나타내지 않았다. 기관기관지 환자에서 폐방선균증이 동반

된 예는 현재까지 확인된 국내외 문헌에는 기재되어 있지 않아 최초의 보고가 아닌가 생각된다.

참 고 문 헌

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. Foster-Carter AF. *Broncho-pulmonary anomalies.* Br J Tuberc Dis Chest 1946;40:111-24.
3. 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
4. Hsieh MG, Liu HP, Chang JP, Chang CH. *Thoracic actinomycosis.* Chest 1993;104:366-70.
5. McQuame DG, Hau WH. *Actinomycosis of the lung and chest wall.* Surgery 1968;64:905-11.
6. Hamer DH, Schwab LE, Gray RG. *Massive hemoptysis from thoracic actinomycosis successfully treated by embolization.* Chest 1992;101:1442-3.
7. Vevecka E, Boeck KD, Moerman P, Van Raemdonck D, Lerut T. *Tracheal bronchus associated with congenital cystic adenomatoid malformation.* Ped Pulmonol 1995;20:413-6.

=국문 초록=

기관기관지는 기관우측벽에서 기시하는 이상 혹은 무기관지를 말하며 재발성 폐렴, 비폐쇄성 기관지 확장증 등의 염증성 질환과 관련 있다. 최근에 우리는 폐 방사균증과 관련된 기관기관지 1예를 경험 하였다. 37세의 남자 환자는 재발성의 객혈을 호소하였고 당초 폐결핵으로 추정하여 항결핵제를 투여 받았으나 임상적으로나 방사선학적으로 호전을 보이지 않았다. 우상엽 폐절제술이 시행되었으며 조직학적 검사에서 폐 방사균증으로 확진되었다. 술 후 환자는 3개월간 penicillin과 ampicillin이 투여 되었으며 6개월간의 추적기간 동안 재발을 나타내지 않고 완전히 회복되었다.

중심 단어 : 1. 기관지 기형
2. 폐 방사균증
3. 폐감염
4. 기관지