

폐문부 종괴로 관찰된 기관지 동맥류 1예

순천대학교 의과대학 내과학교실, 진단방사선과교실¹

홍성아, 하태훈, 류지원, 김양기, 이영목, 김기업, 어수택, 노형준¹, 김용재¹, 구동역¹

A Case of Bronchial Artery Aneurysm Demonstrating Hilar Mass

Seong-Ah Hong, M.D., Tae-Hoon Ha, M.D., Ji-Won Lyu, M.D., Yang-Ki Kim, M.D., Young-Mok Lee, M.D., Ki-Up Kim, M.D., Soo-taek Uh, M.D., Hyung-Jun Noh, M.D.¹, Yong-Jae Kim, M.D.¹, Dong-Erk Goo, M.D.¹

Division of Respiratory & Allergy Medicine, Department of Internal Medicine,
Department of Radiology¹ Soonchunhyang University, School of Medicine, Seoul, Korea

A bronchial artery aneurysm is a rare condition, which needs optimal treatment due to the possibility of a life-threatening hemorrhage by rupture. The surgical removal of the aneurysm is the standard treatment. However, there are a few reports of coil embolization with a transcatheter. A 69 year-old man was referred for a further evaluation of a mass in the right hilum on chest radiography. He denied any respiratory symptoms. A chest CT scan showed a 3 × 3 × 4.5 cm sized vascular mass with strong contrast enhancement on the right hilar area that originated from the bronchial artery. On the angiogram, the bronchial artery originated from the descending thoracic aorta at the T8 level. A bronchial artery aneurysm was catheterized selectively, and embolized successfully with a coil. After coil embolization, the selective bronchial arteriography confirmed complete occlusion. We report this case of bronchial aneurysm that was treated successfully with coil embolization. (*Tuberc Respir Dis* 2007; 62: 62-66)

Key word: Bronchial artery aneurysm, Coil embolization.

서 론

기관지 동맥류는 전세계적으로 50예 정도 보고된 드문 질환으로 알려져 있다¹. 국내에서는 기관지 확장증에서 동반된 거대 기관지 동맥류 1예¹ 와 폐체트병 환자의 폐동맥류가 동반된 1예² 를 보고한 바 있으며 기저질환이나 선행인자 없이 발생한 기관지 동맥류의 보고는 Choi등의 국내 보고 1예³ 가 있었다.

기관지 동맥류는 치명적인 종격동 출혈의 합병증이 발생할 수 있기 때문에 진단 당시 증상이 없더라도 치료를 해야 하는 질병으로 알려져 있어⁴ 우연히 발견된 동맥류도 컴퓨터 단층촬영에서 의심이 되면 기관지 혈관 조영술을 통해 확진해야 하며⁵ 과열될 경우 치명적 결과를 가져올 수 있으므로 진단 즉시 수술적 치료를 요한다⁶. 최근에는 기관지 동맥류의 다양한 증례를

통해서 경도관(transcatheter) 기법이 발전하고 있으며 치료의 선택법으로써 제시하고 있다⁷. 저자들은 우연히 폐문부 종괴로 관찰되었던 기관지 동맥류를 코일 색전술을 통해 우측 기관지동맥으로부터 혈액 공급을 폐쇄시킴으로써 성공적인 치료를 마친 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 이 ○○, 남자, 69세

주 소: 우연히 발견된 우측 폐문부 종괴

현병력: 1개월전 건강검진에서 시행한 흉부 단순 방사선 검사에서 우측 폐문부 종괴가 발견되어 입원하였다

과거력: 특이사항 없음

사회력: 6 갑년의 흡연력이 있음

가족력: 특이사항 없음

이학적 소견: 내원 당시 혈압은 130/80 mm Hg, 맥박수 78회/분, 호흡수 16회/분, 체온은 36.5°C 였으며 의식은 명료하였다. 흉부청진에서 특이소견 없었으며 심음은 정상이었다.

Address for correspondence: **Soo-taek Uh, M.D.**

Address: 657, Hannam-Dong, Yongsan-Ku, Seoul 140-743, Korea

Phone: +82-2-709-9482 Fax: +82-2-709-9554

E-mail : uhs@hosp.sch.ac.kr

Received: Nov. 29. 2006

Accepted: Dec. 21. 2006

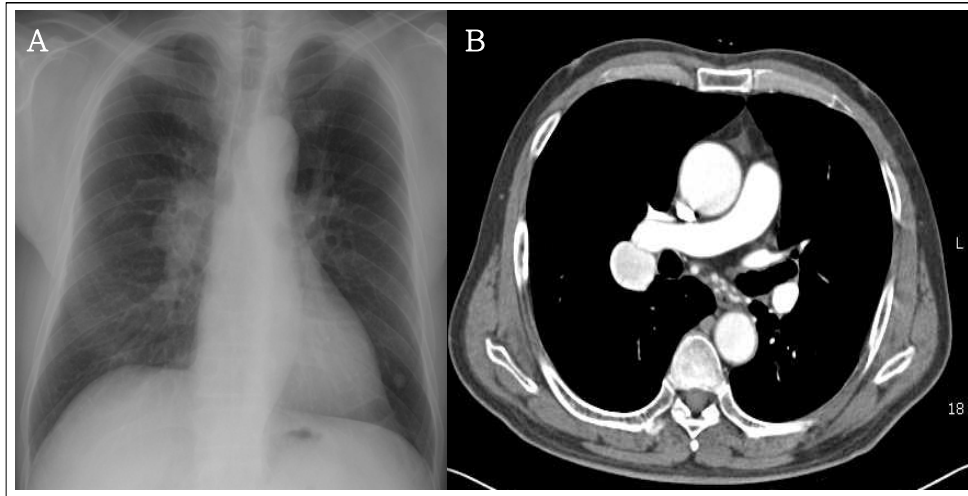


Figure 1. Chest roentgenogram on admission. About 3.5 cm sized, well-defined, mass like opacity is noted in Rt. hilar area (A). About 3 × 3 × 4.5cm sized, well-enhancing mass is noted in right hilar area, supplied by thoracic aorta and drained into azygos and SVC junction(B).

검사실 소견 : 일반 혈액검사에서 백혈구 5,900/mm³, 헤모글로빈 15.7 g/dl, 헤마토크릿 45.6%, 혈소판 209,000/mm³, 일반 화학검사에서 BUN/Cr 15.1/1.0 mg/dl, AST/ALT 16/11 U/L, Na/K/Cl 140/4.1/108 mmol/L, 혈액 응고검사에서 PT/aPTT 12.7sec/83.8%(INR 1.15) 로 측정되었다. 종양표지자 중 CEA 는 0.42ng/ml, Cyfra 21-1은 1.78ng/ml 이었다. 심전도에서는 완전우각차단을 보였다.

방사선 소견: 단순 흉부촬영에서 우폐문부에 경계가 뚜렷한 3.5 cm크기의 종괴 음영이 관찰되었고 조영증강 흉부 전산화 단층촬영에서 우측 폐문부에서 3 × 3 × 4.5 cm크기의 강한 조영증강을 보이는 혈관성 종괴가 관찰되었으며 이는 하행 흉부대동맥에서 기시하는 비정상적으로 굵어진 우측 기관지동맥에서 기원하는 동맥류임을 확인하였다(Figure 1). 대동맥조영상 8번째 흉부 척추 부근 대동맥에서 두개의 우측 기관지동맥이 기원하였으며 두개의 우측 기관지동맥은 한 개로 합쳐진 후 우측 폐문 부위에서 동맥류를 형성하였고, 동맥류 밑부분에서 우측 엽간폐동맥과 누공을 형성하였다.

우측 기관지동맥만 색전했을 때 폐동맥에서 동맥류로 연결이 있을 수는 있으나 폐동맥의 압력은 정맥압이기 때문에 파열은 없을 것으로 생각하고 파열의 위

험성이 높은 우측기관지동맥만 색전하였다. 우측기관지동맥 원위부에서 16개의 미세코일 (Cook, Bloomington, IN)을 사용하여 색전한 후 나머지 근위부 우측기관지동맥은 아교를 사용하여 색전하였다. 시술 후 동맥류가 더 이상 조영되지 않는 것을 확인하고 시술을 마쳤다 (Figure 2).

1주일후 흉부전산화 단층촬영을 시행한 결과 색전술을 시행한 혈관성 종괴 병변의 전내측으로 보이는 혈관의 크기가 증가되어 있었고, 우측 무명동맥과 연결되어 있었으며 종괴는 다시 강한 조영증강을 보여 우측 쇄골하동맥 조영술을 통해서 우측 속가슴동맥 (internal thoracic artery)과 우측 갑상목동맥(thyrocervical artery)에서 기원하는 변형된 기관지 동맥에서 동맥류에 혈액을 공급하는 것을 확인한 후 7개의 미세코일로 (Cook, Bloomington, IN) 색전술을 시행하였다(Figure 2).

두차례의 색전술후 대동맥 조영술에서 동맥류의 조영은 관찰되지 않았다. 2개월 후 흉부전산화 단층촬영에서 기관지동맥류는 더 이상 조영증강이 되지 않았다(Figure 3).

임상소견과 치료: 환자는 현재 증상없이 추적관찰 중이다.

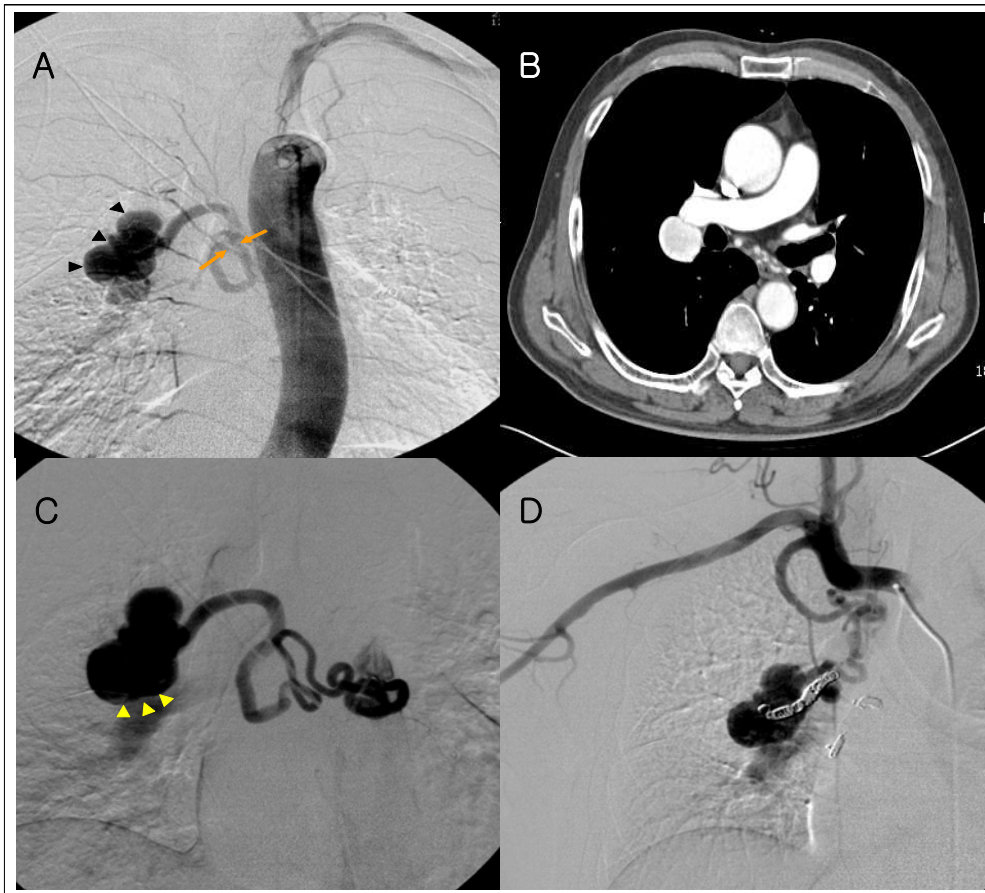


Figure 2. Aortogram demonstrates two right bronchial arteries (arrows) and bronchial artery aneurysm (arrowheads)(A). Even though first embolization was done, bronchial artery aneurysm was still enhanced on chest CT scan(B). Selective right bronchial arteriogram shows bronchio-pulmonary artery fistula (arrowheads) in the bronchial aneurysm(C). Right subclavian arteriogram demonstrates aneurysm of the aberrant bronchial arteries arising from right internal mammary artery and thyrocervical trunk (D).

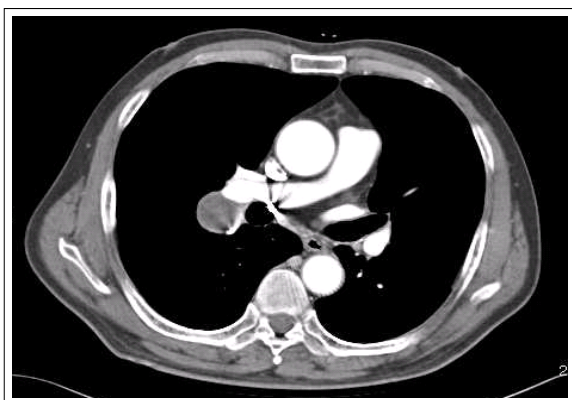


Figure 3. After second embolization was done, bronchial artery aneurysm was not enhanced on chest CT scan.

고 찰

기관지 동맥류는 1930년 매독환자에서 Jacobi에 의해 처음으로 기술된 질환이다⁸. 기관지 동맥류의 병인은 기관지확장증 혹은 결핵 등의 반복적인 기관지와 폐의 염증에 의한 것으로 알려져 있는데, 이는 염증이 있는 동안 폐로 가는 기관지동맥의 혈류가 증가되어 동맥의 확장을 유도하고 이것이 동맥류를 형성한다는 가설이 뒷받침하고 있다⁹.

발생원인은 다양하여 베체트병(Behçet's disease), 수포성 기종의 미란(erosion of emphysematous bullae), 감염된 종양, 혹은 드물게 흉관삽입과 같은

외과적 수술후 혹은 전신성 폐혈관 단락(systemic to pulmonary shunts)등이 있다¹⁰. 이외에도 전신 혈관성 장애를 보이는 Osler-Weber-Rendu 증후군이나 진균성 변성이 있거나³, 동맥경화가 있을 때 선행인자로 작용할 수 있다¹¹. 선행인자 없이 발병한 기관지 동맥류는 2예가 보고되어 있으며, 본 증례도 과거에 기관지확장증이나 결핵의 병력이 없고, 기저 질환을 찾을 수 없었다. 본 증례에서는 다른 선행인자를 찾을 수 없었기 때문에 가장 흔한 원인인 폐의 염증으로 인한 것으로 추정된다.

기관지동맥은 다양한 혈관으로부터 기원할 수 있으나 대동맥의 분지에서 좌우 혈관이 모두 기시하는 경우(66%)가 가장 흔하며 우측 기관지 동맥은 우측 제1늑간동맥에서 기시하기도 한다(25%). 그 외에도 우측 유동맥, 우측 제2늑간동맥 등에서 기시한다³.

기관지 동맥류는 그 위치에 따라서 폐내 혹은 종격동으로 분류하며 흔한 경우가 종격동내 동맥류이다³. 본 증례는 종격동내 기관지 동맥류로 생각되며 우측 기관지 동맥뿐만 아니라 속가슴동맥 및 갑상목동맥에서 기원하는 변형된 기관지동맥에서도 혈류를 받고 있었으나 이런 변형된 기관지 동맥을 간과함으로써 두번의 색전술을 시행하였다. 따라서 색전술 전 컴퓨터 단층촬영의 완벽한 고찰 및 색전술 중 완전한 조영술을 시행해 변형된 기관지 동맥이 있는 지 확인이 이루어져야 하겠다.

본 증례에서도 가장 많은 기원 동맥인 대동맥에서 분지한 것으로 대동맥 조영술에서 확인하였고, 그리고 우측 기관지 동맥 색전술을 시행하였다. 하지만 대동맥 분지외에도 우측 속가슴동맥 및 갑상목동맥에서도 분지함을 추적 검사에서 알 수 있었다. 따라서 기관지 동맥류의 기원 동맥에 대한 확인은 다른 기원동맥에 대한 조사도 같이 이루어져야 할 것이다.

기관지 동맥류는 증상이 없는 경우가 대부분이다¹. Kajuhiro등은 증상을 나타내는 경우 기관지 동맥과 근접한 동맥류 7예를 통하여 대동맥 박리와 비슷한 증상을 호소하거나 객혈, 토혈, 종격동내 혈종등의 증상으로 나타난다고 하였다⁷. 파열된 대동맥외 혈관으로부터 흉막외공간으로 혈류가 유출되는 경우 흉부의 중앙부위에서 찢어지는 듯한 극심한 통증이 등이나

심와부로 방사되어 나타나기도 한다¹¹. 본 환자는 증상이 없이 우연히 발견된 폐문부 종괴를 주소로 자세한 검사를 시행하게 되었다.

진단은 응급상황에서는 주로 혈관조영술로 이루어지게 되나 대개는 무증상의 환자들에서 컴퓨터 전산화 단층촬영이나 혹은 기관지확장증 등을 진단하기 위한 전통적인 흉부 단층촬영을 통해서 발견하게 된다. 확진은 선택적 기관지 혈관조영술을 통해 이루어진다¹¹. 이 증례에서도 확진은 선택적 기관지 혈관조영술을 통해 이루어졌다.

기관지 동맥류의 합병증중 하나로써 치명적인 과열이 발생하는 경우가 있으므로 증상이 없더라도 발견된 경우는 치료를 하는 것이 원칙이다¹³. 수술적 치료로 개흉술을 통하여 유입 및 유출 기관지 동맥을 박리하여 분리 결찰한 이후 동맥류를 박리하여 제거하고, 폐절제술 혹은 폐엽절제술과 함께 기관지 동맥 결찰술을 시행하는 것이 표준화된 기법이다¹.

수술적 치료는 혈액학적으로 안정된 환자에서 조영제 과민반응이 있거나 수질동맥(medullary artery)이 존재하는 경우, 색전술이 불가능하면서 해부학적 형태가 완전한 경우 선택하게 된다¹³.

코일 색전술은 수술적 적응이 되지 않는 내과적 질환이 동반되거나 대량 객혈 혹은 반복되는 객혈의 치료로써 유용하며¹⁴, 혈액학적으로 불안정할 경우 덜 침습적이면서 폐기능이 저하된 환자에서도 시행할 수 있어 이러한 경우 첫 번째 치료로 알려져 있다¹. 그러나 코일 색전술은 동맥류와 동맥 사이의 분절이 짧은 경우 시술과 관련한 합병증이 생길 수 있고 시술이 비효율적으로 시행될 수 있다는 단점이 있으며¹¹, 재발의 가능성이 있어 외과적 절제로 근치적 치료를 하는 것이 권장된다³. 최근에는 수술의 적응증이 되지 않을 경우 다양한 스텐트를 사용하여 치료하기도 하지만 장기간의 예후 관찰이 부족한 실정이다⁹.

본 환자의 경우 동맥류에 혈액을 공급하는 혈관의 범위가 넓으면서 환자의 폐기능은 정상이었기 때문에 폐엽절제술 후 따르는 폐기능의 저하가 크다고 보아 수술의 적응증이 되지 않는다고 판단하여 색전술을 시행하였으며, 향후 재발의 가능성이 있으므로 경과 관찰이 필요하다.

본 환자의 경우 건강 검진으로 촬영한 단순 흉부방사선 촬영에서 우연히 발견된 폐문부 종괴에 대한 진단목적의 흉부 컴퓨터 단층촬영에서 폐정맥와 누를 형성한 기관지 동맥류를 진단하였고, 코일 색전술을 두차례 시행하여 치료에 성공한 증례를 경험하였기에 이에 보고한다.

참고 문헌

1. Choi SY, Ahn C, Min SK, Han JJ, Ahn JH, Won TH. A giant bronchial artery aneurysm in bronchiectatic patient. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2004;37:951-4.
2. Kim YG, Ko HK, Ko OB, Kim TS, Kim HW, Lee CK, et al. Bronchial artery embolization for massive hemoptysis in a patient with Behcet's disease. *J Korean Rheum Assoc* 2005;12:311-4.
3. Choi HJ, Ok KS, Jung SM, Lee YM, Kang YK, Jin JY, et al. A case of bronchial artery aneurysm presenting with massive hemoptysis. *Tuberc Respir Dis* 2002;52:86-91.
4. Shaer AH, Bashist B. Computed tomography of bronchial artery aneurysm with erosion into the esophagus. *J Comput Assist Tomogr* 1989;13:1069-71.
5. Ishizaki N, Shimokawa S, Tanaka K, Taira A, Onohara S, Tabata M, et al. Ruptured bronchial artery aneurysm associated with pleural telangiectasis and tortuous portal obstruction: report of a case. *Surg Today* 1995;25:852-4.
6. Tanaka K, Ihaya A, Horiuchi T, Morioka K, Kimura T, Uesaka T, et al. Giant mediastinal bronchial artery aneurysm mimicking benign esophageal tumor. *J Vasc Surg* 2003;38:1125-9.
7. Yanagihara K, Ueno Y, Kobayashi T, Isobe J, Itoh M. Bronchial artery aneurysm. *Ann Thorac Surg* 1999;67:854-5.
8. Jacobi M. Aneurysm of the bronchial arteries. *Am Heart J* 1930;5:795-800.
9. Sakai T, Razavi MK, Semba CP, Kee ST, Sze DY, Dake MD. Percutaneous treatment of bronchial artery aneurysm with use of transcatheter coil embolization and thoracic aortic stent graft placement. *J Vasc Interv Radiol* 1998;9:1025-8.
10. Hannan RL, Miyaji K, Burke RP, Zahn EM. Endovascular stent graft treatment of a pulmonary artery pseudoaneurysm. *Ann Thorac Surg* 2001;71:727-9.
11. Kalangos A, Khatchatourian G, Panos A, Faidutti B. Ruptured mediastinal bronchial artery aneurysm: a dilemma of diagnosis and therapeutic approach. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1997;114:853-6.
12. Yanagihara K, Ueno Y, Kobayashi T, Isobe J, Itoh M. Bronchial artery aneurysm. *Ann Thorac Surg* 1999;67:854-5.
13. Sancho C, Dominguez J, Escalante E, Hernandez E, Cairois M, Martinez X. Embolization of an anomalous bronchial artery aneurysm in a patient with agenesis of the left pulmonary artery. *J Vasc Interv Radiol* 1999;10:1122-6.
14. Cearlock JR, Fontaine AB, Urbaneja A, Spigos DG. Endovascular treatment of aortopulmonary bronchial artery pseudoaneurysm. *J Vasc Interv Radiol* 1995;6:495-6.