

기관기관지 잔유조직에 의한 선천성 식도협착증 수술 치험

- 3예 보고 -

인제대학교 상계백병원 흉부외과

김 동 원

Congenital Esophageal Stenosis due to Tracheobronchial Remnants

- 3 Case Reports -

Dong Won Kim, MD

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Inje University Sanggye Paik Hospital, Seoul, Korea

Congenital esophageal stenosis due to tracheobronchial remnants is a rare anomaly, resulting in dysphagia and recurrent pneumonia. We have experienced three cases of esophageal stenosis due to ectopic tracheobronchial remnants and performed operative correction. Two patients were 20 months and five year old male with a chief complaints of swallowing difficulty from birth and the other was a twenty three year old female with a slowly increasing symptom of dysphagia for twenty years. Esophagogram of the patient with tracheobronchial remnants shows abrupt narrow segment at distal esophagus with marked proximal dilatation, and linear barium collections perpendicularly projecting from the stenotic esophagus. All of them were performed surgical correction by esophagectomy of the stenotic portion and esophago-gastrostomy with anti-reflux procedures. The resected specimens of these patients showed ectopic tracheobronchial chondroepithelial tissue within the esophageal wall histopathologically. Postoperative course was uneventful and have been in good condition without any problems.

Korean J Bronchoesophagol 2010;16:64-67

KEY WORDS Congenital esophageal stenosis · Tracheobronchial remnants.

서 론

선천성 식도 협착은 매우 드문 질환으로, 환자들은 주로 연하 곤란과 반복된 구토를 일으키며, 특히 고형 음식물을 섭취한 후 흡인성 폐렴을 자주 일으킨다.

저자는 3명의 이소성 기관기관지 잔유 조직에 의한 식도 협착 환자에서 수술적 교정을 경험하였는데, 출생

후부터 연하 곤란을 주소로 한 20개월과 5세의 남아와 20년간 서서히 연하 곤란 증상이 진행된 23세의 여자 환자이었다.

모든 환자는 협착 부위의 식도를 절제하고 식도위문합을 시행하였으며 현재 정상적인 소견을 보이고 있는 바, 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

증 례 1

환자는 20개월된 남자 환아로 고열과 기침을 주소

논문접수일: 2010년 2월 22일 / 심사완료일: 2010년 6월 14일

교신저자: 김동원, 139-707 서울 노원구 상계7동 761-1

인제대학교 상계백병원 흉부외과

전화: 02-950-1044 · 전송: 02-935-2788

E-mail: dongwkim@paik.ac.kr

로 입원하였는데 생후 6개월 이후로는 반복적인 구토를 동반하였다. 이학적 검사 및 단순 흉부 방사선 소견에서 흡인성 폐렴 소견을 보였으며 24시간 pH monitoring에서 위식도 역류 소견은 없었다. 식도 조영술에서 하부 식도의 협착 부위 근위부의 심한 팽대를 동반한 협착 소견을 보였으며(Fig. 1) 동반된 다른

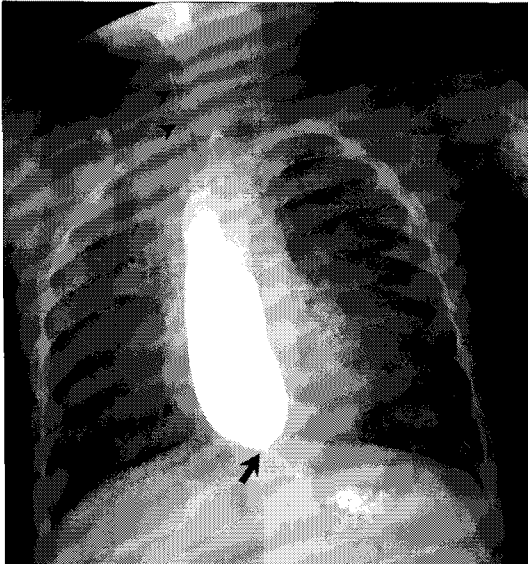


Fig. 1. Pre-operative esophagogram shows luminal narrowing at distal esophagus (arrow) with marked proximal dilatation. Small amount of contrast media is aspirated (arrow heads) to the trachea. The perihilar and infrahilar infiltrations of both lungs suggest aspiration pneumonia.

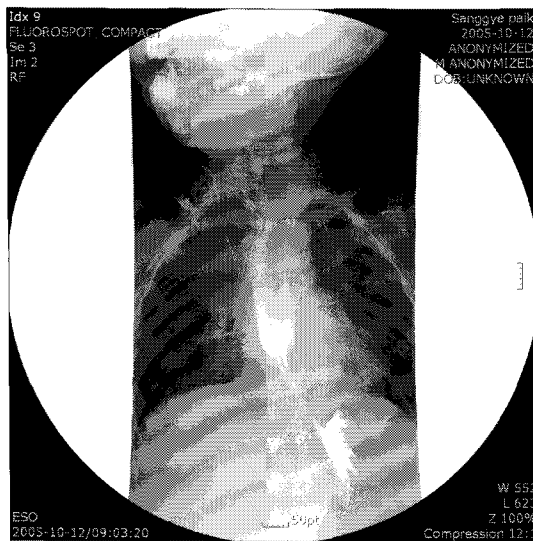


Fig. 2. Post-operative esophagogram shows no anastomotic leakage and passage disturbance.

기형은 없었다. 수술은 좌측 제 6번째 늑간을 통해 접근을 시도하여 병변 부위의 박리를 시도하였다. 병변 부위는 환상의 딱딱한 종괴의 양상을 보였으며 병변 부위 상하 약 1 cm의 간격을 두고 절단한 후 단단 문합을 시행하였다(Fig. 2).

절단된 조직은 이소성 기관기관지 연골성 표피 조직으로 확인되었으며(Fig. 3) 환아는 수술후 10일째 무사히 퇴원하여 외래 통한 관찰 중인 바 건강하게 잘 지내고 있다.

증 례 2

환아는 5세된 남자로 출생시부터 발생한 연하 장애로 고형 음식은 섭취하기가 힘들었으며 우유식만 가능하였다. 증상이 점점 심해져서 내원한 바, 식도 조영술에서 하부 식도로 부터 위의 분문(cardia) 직상부까지 약 3.5 cm의 협착이 확인되었으며, 동반된 다른 기형으로 작은 크기의 심실 중격 결손이 있었다. 수술 전 시행한 검사상 특이 소견은 없었다. 수술은 좌측 개흉술 하에 6번째 늑간을 통해 접근하여 병변 부위를 박리하였다. 연골 조직 같은 촉감의 딱딱한 종괴의 양상을 띠었으며, 횡격막으로의 식도 입구부까지 약 3 cm 정도의 병변을 확인할 수 있었다. 횡격막을 절개 후 병변 부위 상하부로 유동시켜 병변 부위로부터 약 0.5 cm의 거리를 두고 절단하여 식도위 문합을 시행하였다. 절개한 횡격막은 문합부 상방에 위치시켜 봉합하여 식도위 역류를 예방하기 위한 고안으로 활용하였다.

수술 후 6일째 시행한 식도 조영술에서 누출 및 협



Fig. 3. Photomicrograph of histopathologic specimen shows respiratory epithelium (thin arrow) with cartilage (thick arrow) and mucous gland (empty arrow) in the esophageal wall (Hematoxylin-eosin stain)(× 100).

착의 소견은 없었고 병리 조직학적 소견에서 이소성 기관-기관지 잔유 조직에 합당한 소견이 관찰되었다. 환자는 수술 후 11일째 무사히 퇴원하여 외래를 통하여 추적 관찰하고 있다.

증 례 3

환자는 23세된 여자 환자로 약 20년 전부터 우유 등을 마시고 나면 역류 현상이 있었으나 무심코 지냈으며, 성장하면서 연하 장애는 있었으나 심하지 않아 별 치료 없이 지내다가 내원 수일 전 발생한 공복시 상복부 동통으로 인근 개인 병원을 방문하였다. 식도 조영술에서 식도 무이완증(achalasia)의증으로 진단받고 수술을 위해 본원으로 전원되었다. 식도 조영술 소견에서 새부리 모양의 병변 부위 상방에 확장된 병변과 식도 위 경계 부위에 궤양성 병변이 확인되었으며, 식도 내시경 소견상으로는 incisor로부터 약 35 cm 하방에 심한 식도 협착의 양상을 관찰할 수 있었다. 환자는 수술 전 필요한 혈액 검사 및 기타 검사를 마친 후 수술을 시행하였다. 좌측 개흉술 하에 8번째 늑간을 통해 수술적 시야를 확보하여 하부 식도의 병변 부위를 노출시켰다. 약 4 cm 정도의 병변 부위를 확인할 수 있었으며, 딱딱한 연골 조직 같은 촉감을 느낄 수 있었다.

병변 부위 상하부로 유도시킨 후 식도 절제를 시행하고, 횡격막 일부를 절개하여 식도-위 문합을 시행하였다. 이후 역류 방지의 수기로 Nissen fundoplication을 시행하고, 절개한 횡격막을 복원하여 수술을 마쳤다.

수술 후 병리조직학적 검사 소견에서 이소성 기관-기관지 잔유 조직에 합당한 소견이 관찰되었으며 수술 후 6일째 식도 조영술을 실시하여 문합 부위의 누출 및 협착이 없음을 확인하고 수술 후 10일째 퇴원하여 건강히 지내고 있다.

고 찰

기관-기관지의 이소성 잔유 조직에 의한 식도 협착은 매우 드문 질환으로 영유아기에 있어서 하부 식도의 선천성 협착의 원인 중 간과할 수 없는 중요한 부분을 차지하고 있다.^{1,2)}

이 질환은 또한 증상의 발현 자체를 인지하지 못하고 있다가 성인이 되어서 진단되는 경우가 보고되고 있는데, 본 저자가 경험한 한례도 성인이 되어서 수

술을 받게된 경우가 있었다.³⁾

이 질환의 병태생리는 발생학적으로 원시 식도(primitive esophagus)로부터 호흡기계의 정상적인 분리가 실패되어 생기는 것으로 생각하고 있으며 기관 식도루, 기관 기관지의 잔유 조직을 포함한 식도 게실 등의 발생학적 기원과 같다고 한다. 또한 임상적 양상은 연하 곤란과 반복적인 구토를 일으키는데 특히 고형음식을 섭취한 후 흡인성 폐렴 등을 일으킬 수 있다고 한다.^{4,5)}

Nishida 등에 의하면 이 질환과 동반된 기형의 발생 빈도는 17.3%를 보고하였는데, 이는 선천성 식도 폐쇄 환자에 비해서는 낮은 빈도라고 하였으며, 가장 흔히 동반되는 기형으로는 식도폐쇄라고 하였고, 그 다음이 항문 직장계 기형이라고 하였으며 심혈관계 질환은 거의 동반되지 않았다고 하였다. 그러나 본 저자가 경험한 한례의 환자에 있어서는 심실 중격 결손증이 동반되어 있었다.⁶⁾

이 질환의 진단은 부식성 물질에 의한 이차적 협착, 식도 열공 탈장을 동반한 역류성 식도염과, 드물게는 식도 무이완증 등과 감별해야 한다. 방사선 투시 촬영시 기관-기관지의 잔유 조직에 의한 협착은 연하시에도 협착 부위가 확장되지 않는다는 점을 확인하여야 하며, 식도 내시경 소견으로는 식도 열공 탈장 등에서는 염중에 의한 협착이 동반되는 반면, 이 질환은 식도염을 거의 동반하지 않는다는 점에서 감별할 수 있다고 한다.⁷⁾

이 질환의 병리 조직학적 소견은 대부분에 있어서 협착 부위에 연골 조직과 점액선이 함께 포함되어 있었다고 하였으며, Paulino 등은 이 병변 부위에서 호흡기계 상피를 주로 확인할 수 있었다고 하였다. 본 저자가 경험한 환자에 있어서도 연골환 조직과 호흡기계 상피를 확인할 수 있었다.^{8,9)}

이 질환의 치료 방법은 일차적으로는 방사선과적인 풍선도자에 의한 확장 성형술을 실시할 수 있으나, 대부분의 보고에서도 언급하듯이 병변 부위의 충분한 절제 후 단단 문합하는 외과적 방법이 추천되는 방법이라고 하였다.^{10,11)} 본 저자가 경험한 한례에서도 방사선과적 풍선 도자를 실시하였으나, 만족할 만한 결과를 얻지 못하였고, 결국 외과적 절제에 의한 단단 문합을 시행하였다.

이상 기관 기관지의 잔유 조직에 의한 식도 협착증

환자를 외과적으로 절제하여 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Amae S, Nio M, Kamiyama T. Clinical characteristics and management of congenital esophageal stenosis: a report on 14 cases. *J Pediatr Surg* 2003;38:565-70.
- 2) Chahine AA, Campbell AB, Hoffman MA. Management of congenital distal esophageal stenosis with combined Collis gastroplasty-Nissen fundoplication. *Pediatr Surg Int* 1995;10:23-5.
- 3) Sneed WF, LaGarde DC, Kogutt MS, Arensman RM. Esophageal stenosis due to Cartilaginous Tracheobronchial Remnants. *J Pediatric Surg* 1979;14:786-8.
- 4) Lee SW, Choi WS, Lim JH, Yang MH. Esophageal stenosis due to tracheobronchial remnants. *J Korean Radiol Soc* 1987; 23:1069-72.
- 5) Rose JS, Kassner EG, Jurgen KH, Farman J. Congenital Oesophageal Strictures due to Cartilaginous Rings. *Br J Radiol* 1975;48:16-8.
- 6) Nishida T, Tsuchida Y, Saito S. Congenital Esophageal Stenosis due to Tracheobronchial Remnants and its Associated Anomalies. *J Pediatric Surg* 1981;16:190-3.
- 7) Fonkalsrud EW. Esophageal Stenosis due to Tracheobronchial Remnants. *Am J Surg* 1972;124:101-3.
- 8) Maeda K, Hisamatsu C, Hasegawa T, Tanaka H, Okita Y. Circular myectomy for the treatment of congenital esophageal stenosis owing to tracheobronchial remnant. *J Pediatr Surg* 2004;39:1765-8.
- 9) Paulino F, Roselli A, Aprigliano F. Congenital Esophageal Stricture due to Tracheobronchial Remnants. *Surgery* 1962; 53:547-50.
- 10) Oh CH, Levine MS, Katzka DA. Congenital esophageal stenosis in adults: clinical and radiographic findings in seven patients. *Am J Roentgenol* 2001;176:1179-82.
- 11) Zhao LL, Hsieh WH, Hsu WM. Congenital esophageal stenosis due to tracheobronchial remnants. *J Pediatr Surg* 2004; 39:1183-7.