

기관 식도루를 동반한 선천성 식도 폐쇄증 : 치험 5례

송진천* · 안병희* · 이동준*

— Abstract —

Surgical Experience of Esophageal Atresia Associated with Tracheoesophageal Fistula

J.C. Song, M.D.*, B.H. Ahn, M.D.*, D.J. Lee, M.D.*

This report is an review of 5 cases of congenital esophageal atresia associated with tracheoesophageal fistula which were treated in the Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Chonnam University Hospital from January, 1987 to February, 1989.

First patient that was associated with VACTERL syndrome and moderate pneumonia, i.e., Waterston Category C was treated by gastrostomy, colostomy and primary anastomosis, but expired.

Second patient that was weighed 2.2Kg, suffered from moderate pneumonia was treated by gastrostomy, but died from asphyxia.

The other patients were treated by primary repair. Any anastomotic leakage or gastroesophageal reflux was not found in these cases, but mild anastomotic strictures were found in these patients by postoperative esophagography. However, esophageal dilatation of anastomotic strictures was successful using the Grüntzig balloon catheter.

1. 서 론

선천성 식도 기관지루 기형은 드문 질환으로 알려져 있다. 그러나 그중 가장 흔한 질환은 기관 식도루를 동반한 식도 폐쇄증이다¹⁾. 이러한 환아들은 대개 태액 과다분비가 있으며 수유시에 호흡곤란, 청색증 등의 흡인증상에 의해 발견된다²⁾.

이 기형은 1696년 Thomas Gibson³⁾이 처음으로 발표하였고, 1939년 William A Ladd⁴⁾, N. L. Leven⁵⁾이 각각 생후 72시간된 남아에서 위무조성술 후 단계적 수술에 성공하였고, 1941년 Cameron Haight⁶⁾가

일차적 식도 문합술을 성공한 이래 여러가지 술식이 고안되어 사용되고 있다. 그러나 현재까지도 환아의 체중, 동반기형 및 폐렴 유무에 따른 수술의 시기 및 수술방법, 진단방법, 수술시의 경흉강적 도달법 및 후흉강적 도달법의 유용성, 위부조성술의 필요 유무, 식도 봉합시 전층단순봉합 또는 이층봉합 및 술후 발생할 수 있는 식도협착의 처리 방법등에 이견이 있다.

전남의대병원 흉부외과 교실에서는 1987년 1월부터 1989년 1월까지 기관식도루를 동반한 선천성 식도 폐쇄증 환아 5례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

2. 대상 및 방법

환아는 남아 1명 여아 4명이었으며 모두 Kluth¹⁾의 분류 Type IIIb였다. 2번 환아에서만 체중 2.2 Kg으로

* 전남대학교 의과대학 흉부외과학교실
* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Chonnam University Hospital, College of Medicine. 1989년 11월 2일 접수

Waterston⁷⁾ category B에 해당하였고 다른 4례는 2.5 Kg 이상이였다. 2명에서는 동반 기형이 있었는데 1례는 VACTERL 증후군⁸⁾이었으며, 1례는 동맥관 개존증을 동반하였다. 내원당시 임상적으로 폐렴의 의심스럽거나 단순 흉부 X-ray상 폐야에 음영증가가 보인례는 3례였다(Table 1).

Table 1.

No.	Sex	B.W.	Type	Ass.Anomaly	Pneumonia
1.	M	2.6	IIIb	VACTERL*	moderate
2.	F	2.2	IIIb	none	moderate
3.	F	2.3	IIIb	none	none
4.	F	2.9	IIIb	PDA	moderate
5.	F	3.1	IIIb	none	none

* Vertebral anomaly, anal atresia, cardiac anomaly, TEF, EA, renal or radial anomaly, limb anomaly.

3명의 환아는 다른병원에서 출산하여 수유시 기침 및 호흡곤란이 있어 식폐쇄증을 의심하여 식도조형술을 실시하여 확진한후 전원 되었고, 2명의 환아는 본원에서 출산한 환아로서 방사선 불투과성 급식관을 식도 상부 맹관에 위치시킨후 공기를 주입한후 흉부 단층촬영으로 진단하였다(Fig. 1).

환아는 식도의 상단부에 카테타를 삽관한후 복외위나 파울러위를 취하여 폐로 유입되지 않도록 주의하였고 폐렴이 의심스러운 경우에는 항생제를 투여하였다. 수술의 시기 및 방법은 2.5 Kg 이상이며 심한

동반 기형이 없고 폐렴 증상이 없는 2명의 환아에서는 즉시 일차적 문합술을 실시하였고, 1.8-2.5 Kg 사이이거나 폐염의 증상이 있을시에는 일단 위루조성술후에 폐염이 호전되면 이차적 문합술을 시도하려 하였는데 2번 환아의 경우 위루조성술후 질식사 하였다. 1.8 Kg이하, 중증의 선천 기형을 동반하거나, 중증의 폐염등이 있는 환아에서는 위루조성술과 개흉술을 하여 하부 기관 식도루만 봉합하는 것을 Waterston등은 권하였는데 1번 환아의 경우 저자등은 일차적 수술까지 실시하였는데 술후 펍노, 고칼륨혈증등의 소견을 보이며 사망하였다(Table 2).

일차적 수술은 환아를 좌측방위를 취한후에 후측방 5번째 늑간으로 진입하였다. 1, 3번 환아에서는 후흉

Table 2.

No.	op. time	op. name	result
1.	2 day	gastrostomy, colostomy 2 layer EEA	death: renal F.
2.	9 day	gastrostomy	death: asphyxia
3.	2 day	gastrostomy 1 layer EEA	esophageal stricture
4.	3 day	1 layer EEA	pneumonia, PDA remain
5.	4 day	1 layer EEA	esophageal stricture

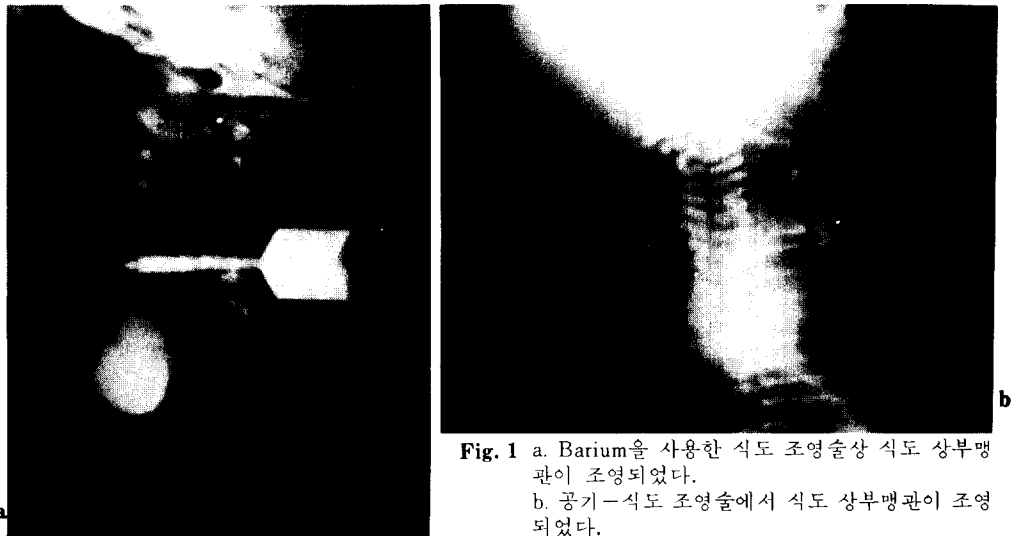


Fig. 1 a. Barium을 사용한 식도 조영술상 식도 상부맹관이 조영되었다.
b. 공기-식도 조영술에서 식도 상부맹관이 조영되었다.

강적 도달법을 시행하였으나 4, 5번 환아에서는 경흉강적 도달법을 시행하였다. azygos정맥을 분리 결찰 절개 후 하부의 기관지 식도루를 노출및 분리후 4-0 Silk로 식도부위와 기관지부위에 포시해 놓은후 메스나 Mezembaum 가위로 절단하였다. 기관지 부위는 3-0 Silk로 단순봉합한 후 공기를 주입하여 공기 누출여부를 확인하였다. 그런후 상부의 식도맹관을 하부맹관과 문합할수 있을 정도로 충분히 박리하였다. 이때 술

전에 발견하지 못한 기관 상부식도루가 존재하는지 확인하였다.

환아 1에서는 2층봉합을 하였으나 환아 3, 4, 5에서는 3-0 Dexon 또는 Vicryl을 사용하여 단순 봉합을 하였다. 급식관을 위내로 진입시킨후 1개의 배액관을 식도 문합부위주위에 위치시킨후 수술을 마쳤다(Fig. 2).

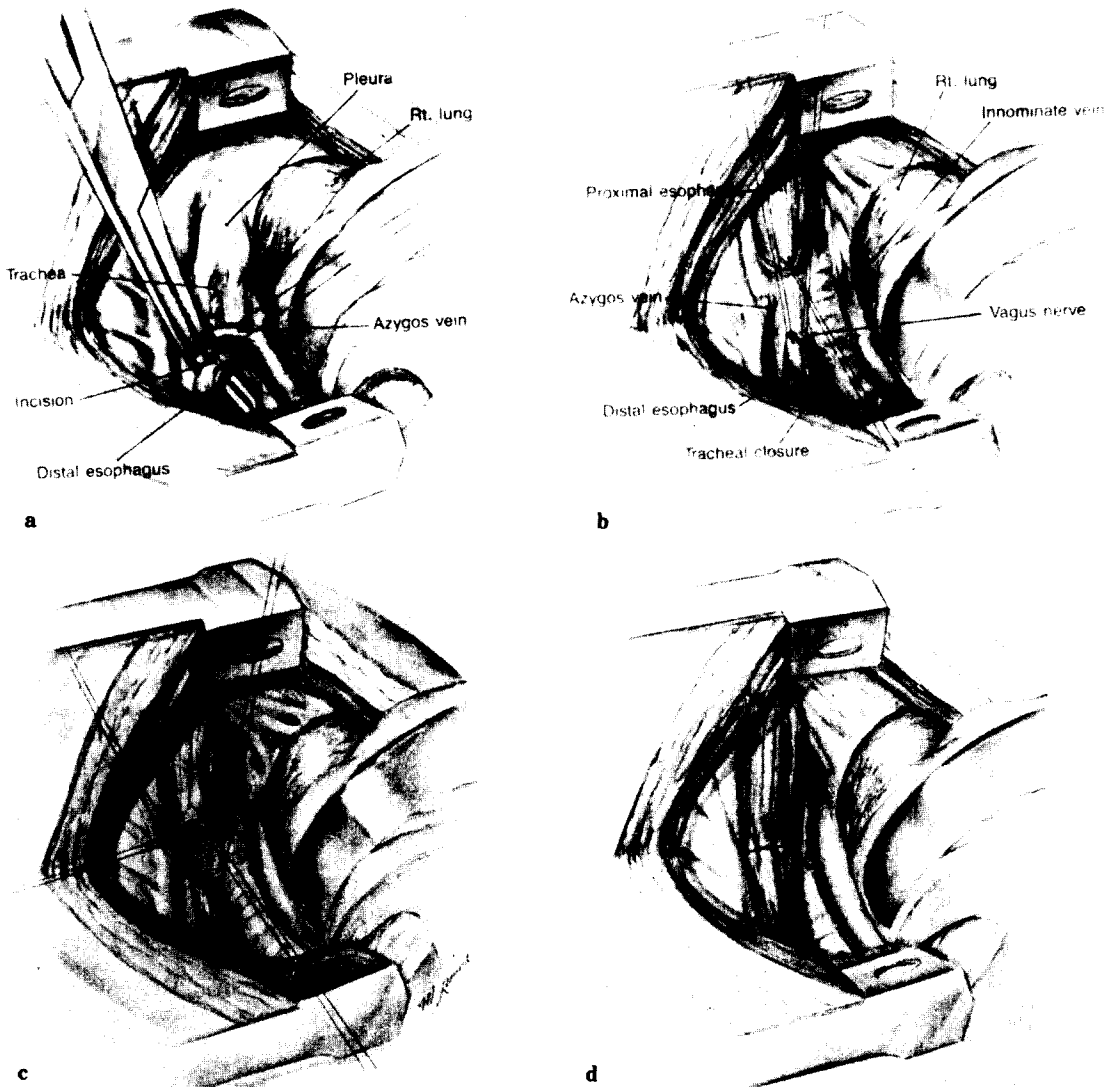


Fig. 2. a. 개흉후 기성정맥을 결찰한후 하부의 기관지식도루를 노출하였다.
 b. 기관지식도루를 봉합한후 견인을 위하여 수개의 봉합사를 상하부 식도맹관에 걸어놓은후 상하부 식도맹관을 박리하였다.
 c. 양쪽 맹관을 끝부위를 근접시킨다.
 d. 4-0 Dexon 또는 4-0 prolene을 사용하여 전층 단순봉합하였다.

2명의 환아(No 1, No 2)가 술후 24시간 이내에 사망하였다. 1번환아는 VACTERL 증후군과 중증도의 폐렴을 동반한 환아로 결장조루술과 일차적 수술을 시행했는데 결장조루술, 위루조성술 및 기관식도루 결찰만을 시행함이 좋을지도 모른다. 그러나 환아의 사망원인이 췌노, 고칼륨혈증 등의 심부전증과 저심박출증이었기에 저자는 일차적 수술 자체가 사망에 이르게 했다고 단정할 수 없었다. 2번 환아는 위루조성술을 시행하였는데 술후 기관내 분비물이 많아서 기관내 삽관을 해놓았던 환아로서 질식사 하였다. 사망확인 후 기관내 삽관을 발관해보니 점액성 분비물이 도관내부를 90%이상 막은 상태였다. 기관내 삽관을 심폐정지 이전에 교체했다면 생존하였을 것으로 사료되었다.

생존한 환자 3명에서 술후 7-10일경에 식도조형술을 실시하였다. 누출은 없었으며 1명의 환아에서만 경한 위식도역류가 발견되었으나 3명모두에서 문합부에 경도 또는 중증도의 식도협착이 발견되었다. 이 환아들은 Gruntzig씨 풍선도자를 사용하여 식도성형술을 실시하여 양호한 결과를 얻었다(Fig. 3). 4번 환아는 동맥관 개존증이 있는 환아로서 폐렴으로 치료중에 있는데 동맥관을 결찰할 예정이다.

1969년 Thomas Gibson³⁾이 기관식도루를 동반한 선천성 식도폐쇄증을 처음발견한후 243년이 지난 1939년에 Ladd⁴⁾와 Leven⁵⁾이 단계적 수술에 처음으로 성공하였고, 그후 수술방법과 마취학의 발달및 수술전후의 처치(perioperative care)의 개선등으로 사망율 및 이환율이 급격히 감소되었다. 그러나 현재까지도 환아의 상태에 따라 수술시기및 방법에 이견이 있으며, 진단방법, 경흉강적 도달법과 후흉강적 도달법의 유용성, 위루조성술의 필요성 유무, 식도봉합시 전층단순봉합 또는 2층봉합, 술후 발생할 수 있는 식도협착의 처리방법등은 논란중에 있다.

Waterston등은⁷⁾ 저체중 또는 조산, 동반 기형 및 폐염이 사망과 크게 관련된다고 주장하였고 특히 출산시 1.8 Kg 이하이거나 체중은 2.5 Kg 이상이나 폐염이 있을때는 단계적 수술을 권하였지만, Andrassy 등⁹⁾, Hicks 등¹⁰⁾, 및 Filston 등¹¹⁾은 출산시 체중은 사망율과 큰 관계는 없다고 하였다. 식도폐쇄가 의심되면 대부분의 경우 방사선 불투과성 급식관을 통과시켜 흉부단순촬영으로 확진할 수 있는데 만일 진단이 의심스러우면 1 cc 정도의 희석된 barium을 급식관을 통하여 식도의 상부맹관에 주입하여 확진 할 수 있다. 이때 barium이 폐로 흡입되어 상태가 악화될

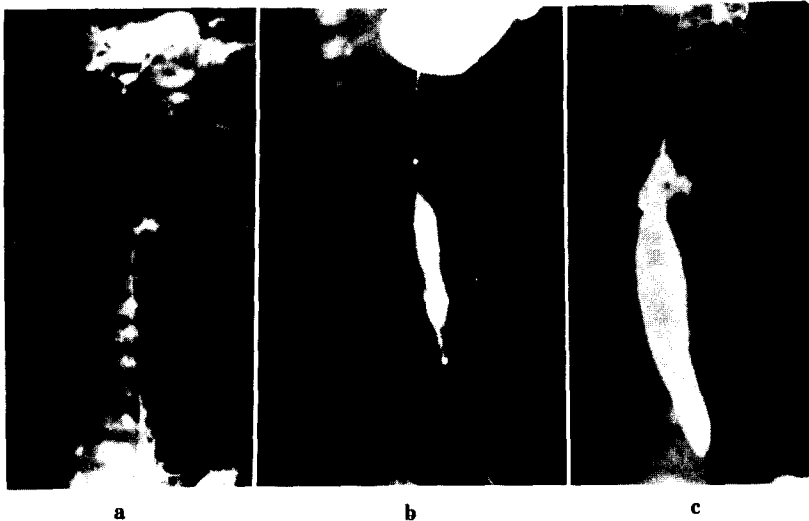


Fig. 3. a. 5번 환아의 술후 실시한 식도조영술상 식도문합부에 협착이 보였다.
b. Gruntzig씨 풍선도자를 사용하여 식도성형술을 실시하였다.
c. 식도성형술후 식도문합부의 협착이 완전히 해소되었다.

Table 3. Collected Series of Patients With EA and Distal TEF

Authors	No. of Cases	Years	% Mortality	% Leak	% Stricture	% Recurrence
Holder et al ¹⁴ (80% transpleural)	916	1958-1962	39 %	16.7 %	14%-25%	-
Strodel et al ¹⁶ (Retropleural)	365	1935-1976	12 %	5%-8%	20 %	5%-7.5 %
Hicks et al ¹⁰ (Both retro- and transpleural)	82	1967-1979	7 %	18 %	5%-18%	5 %
O'Neill et al ¹⁷ (Retropleural)	53	1971-1980	7.5 %	3.8 %	15 %	-
Louhimo et al ¹² (Last 100 transpleural)	441	1947-1978	15 %	16.6 %	-	-
Bishop et al ¹⁸ (Transpleural)	271	1951-1983	12 %	15%-20%	11%-15%	5 %

수가 있으므로 barium 대신 공기를 주입하기도 하는데 동반된 상부의 기관식도루를 간과할 가능성이 있다. 공기를 사용한 식도 조형술을 실시했던 경우는 수술시에 식도의 상부맹관을 가능한 한 상부까지 박리하여 상부기관 식도루의 존재여부를 확인하는 것이 좋다.

Louhimo 등¹²⁾과 Putnam 등¹³⁾은 일차적 수술시 경흉강적 도달법을 시행하였으나 Haight⁶⁾, Holder¹⁴⁾ 및 Manning 등¹⁵⁾, Strodel 등¹⁶⁾, O'Neil 등¹⁷⁾은 문합부 위의 누출이 있을때 흉흉강적 도달법을 사용했던 환자들의 사망률 및 이완율이 감소한다고 하였다. 그러나 Hicks 등¹⁰⁾, Bishop 등¹⁸⁾은 최근의 대규모의 논문들을 분석하면서(Table 3) 경흉강적 도달법에서 후흉강적 도달법으로 바뀌었다가 다시 경흉강적 도달법을 선호하는 경향이라고 분석하였다.

Louhimo 등¹²⁾과 Manning 등¹⁵⁾은 관계적으로 위루 조성술을 실시한다고 하였으나 Filston 등¹¹⁾과 Bishop 등¹⁸⁾은 식도하부에 폐쇄성 병변이 있거나 중추신 경계에 이상이 있어 술후에 구강을 통한 수유를 할수 없을때, 식도 문합부 누수가 있거나 식도협착이 발생하여 식도확장술을 반복하여야 할 필요가 있는 경우에만 실시한다고 하였다. 문합방법은 Haight⁶⁾는 초기에는 전층단순봉합 방법 사용시 누출이 더 많다고 사료되어 telescoping 방법으로 알려진 고전적인 2층 봉합술을 선호하고 있으나 Holder 등¹⁴⁾, Hicks 등¹⁰⁾, Louhimo 등¹²⁾, Breadmor 등¹⁹⁾, Pietsch 등²⁰⁾, 및 Manning 등¹⁵⁾은 전층단순봉합을 하여도 누출은 2층 봉합시

와 비슷하고, 협착은 더 작으며 하부식도 부위를 적게 박리하여도 된다는 점을 들어 전층 단순봉합방법을 선호한다고 하였다.

술 후 호발하는 합병증으로는 문합부 누출과 식도협착 등인데, 문합부의 누출이 소량일때는 금식시키며 항생제 투여 및 비경구적 영양법 등의 고식적 방법으로 처치하고 대량일 경우에는 상기의 방법에 적절한 백액법과 위루조성술을 실시하며 필요에 따라서는 경부에서 식도루 조성술을 시행하고 하부식도를 봉합하기도 한다. 저자들은 술후 7-10일 경에 식도조형술을 실시하여 누출 또는 협착 여부를 확인하고 관계적으로 Gruntzig씨 풍선도자를 사용하여 식도성형술을 실시하여 식도협착을 배제 할 수 있었다^{12,21)}.

5. 결 론

전남대학병원 흉부외과 교실에서는 1987년 1월 부터 1989년 1월 사이에 기관식도루를 동반한 선천성 식도 폐쇄증 환자를 5례 치험하였다. 1례는 VACTERL 증후군과 중증도의 폐염을 동반한 Waterston category C의 예로서 위루조성술, 결장조루술 및 일차적 수술을 시행하였는데 사망하였고, 체중 2.2 Kg이었고 중증도의 폐염을 동반한 1례에서 위루술을 시행한후 질식으로 사망하였다. 다른 3례는 전층 단순봉합술을 사용하여 일차적 수술을 하였는데 누출은 없었으나 수술후 첫번째 식도 조형술에서 경한 식도 협착이 존재하여 Gruntzig씨 풍선 도자를 사용하여 식도성형술을

시행한후 호전되어 퇴원하였다. 생존환아 3명중 1명은 동맥관 개존증 동반환아로서 술후 1개월째 폐렴이 발생하여 치료중에 있으며 향후 동맥관 결찰술을 시행할 예정이다.

REFERENCES

1. Kluth, D: *Atlas of Esophageal Atresia. J. Pediatr. Surg.* 11:901, 1976.
2. Moores, D.W.O., Britton, L.W. III, McKneally, M.F.: *Shield's General thoracic surgery. ed. 3. Lea & Febiger Co.* 964. 1989.
3. Gibson, T.: *The anatomy of humane bodies epitomized, ed.6. London, 1703, Awnsham and Churchill.*
4. Ladd, W.E.: *The surgical treatment of esophageal atresia tracheoesophageal fistula, New England J. Med.* 230:625, 1944.
5. Leven, N.L.: *congenital atresia of the esophagus with tracheoesophageal fistula: report of successful extrapleural ligation of fistulous communication and cervical esophagostomy. J. Thoracic. Surg.* 10: 648, 1941.
6. Haight, C.: *Congenital seophageal atresia and tracheoesophageal fistula. In Pediatric Surgery C.D. Benson et. al., Eds. Chicago, Year Book Medical Publishers, 1962.*
7. Waterston, D.J., Carter, R.E.B., Aberdeen, E.: *Esophageal atresia: Tracheo-esophageal fistula; A Study of Survival in 218 Infants. The Lancet.* 21:819, 1962.
8. Landing, B.H.: *Syndromes of congenital Heart Disease, with Tracheo-bronchial anomlies. Edward B.D. Neuhauser Lecture, 1974. Am. J. of Roentgenology.* 123:679, 1975.
9. Andrassy, R.J., Mahour, H.: *Gastrointestinal Anomalies Associated With Esophageal Atresia or Tracheoesophageal Fistula. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 94:828, 1987.
10. Hicks, L., Mansfield, P.B.: *Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. Review of thirteen years' experience. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 31:358. 1981.
11. Filston, H.C., Rankin, J.S., Grimm, J.K.: *Esophageal atresia. Prognostic factors and contribution of preoperative Telescopic Endoscopy. Ann. Surg.* 199:532, 1984.
12. Louhimo, I., Lindahl, H.: *Esophageal Atresia: Primary Results of 500 Consecutively Treated Patients. J. Pediatr. Surg.* 18:217, 1983.
13. Putnam, T.C.: *Esophageal Atresia. Critical analysis of 39 cases. Arch. Surg.* 114:288. 1079.
14. Holder, T.M.: *Transpleural versus Retropleural Approach for Repair of Tracheoesophageal Fistula. Surg. Clin. North. Am.* 44:1433, 1964.
15. Manning, P.B., Morgan, R.A., Coran, A.G., Wesley, J.R., Polley, T.Z. Jr., Behrendt, D.M., Kirsh.M.M., Sloan.H.E.: *Fifty Years' Experience with Esophageal Atresia and Tracheoesophageal fistula. Beginning with Cameron Haight's First Operation in 1935. Ann. Surg.* 204:446, 1986.
16. Strodel, W.E., Coran, A.G., Kirsh, M.M.: *A 41-year experience. Arch. Surg.* 114:523, 1979.
17. O'Neil, J.A., Holcomb, G.W., Neblett, W.W.: *Recent experience with esophageal atresia. Ann. Surg.* 195:739, 1982.
18. Bishop, P.J., Phillipart, K.A.I., Hixson, D.S., Hertzler, J.H.: *Transpleural Repair of Esophageal Atresia without a Primary Gastrostomy: 240 Patients Treated Between 1951 and 1983. J. Pediatr. Surg.* 20:823, 1985.
19. Beardmore, H.E.: *Discussion in Kiesewetter WB(ed): Long-Term follow-up in Congenital Anomalies. Pediatric Surgical Symposium, Sept. 14, 15, 1979. Pittsburgh, Ph., pp 28-29 Publ. by the Children's Hospital of Pittsburgh.*
20. Pietsch, J.B., Stokes, K.B., Beardmore, H.E.: *Esophageal atresia with tracheoesophageal fistula: End-to-End versus end-to-side repair. J. Pediatr. Surg.* 13:677, 1978.
21. Goldthorn, J.F., Ball, W.S.Jr., Wilkinson, L.C., Seigel, R.S., Kosloske, A.M.: *Esophageal strictures in children: Treatment by serial Balloon Catheter Dilatation. Radiology.* 153:655, 1984.