

기관지 결석증을 동반한 식도기관지루

- 1례 보고 -

조 갑 호* · 김 민 호* · 김 공 수*

-Abstract-

Esophago-Bronchial Fistula with Broncholithiasis - A Case Report -

Gab Ho Cho, M.D.* , Min Ho Kim, M.D.* , Kong Soo Kim, M.D.*

Broncholithiasis is defined as a condition in which a concretion is present within a bronchus or a cavity in the lung communicating with a bronchus.

Broncholithiasis, although recognized in antiquity by Aristotle and well known to accompany the mediastinal calcifications of tuberculosis and histoplasmosis frequently seen in our society, is rarely mentioned in recent medical literature.

Esophagobronchial fistula is an uncommon finding in broncholithiasis.

This report is a case of esophagobronchial fistula with broncholithiasis in 58-year-old male patient who complained paroxysmal coughing after ingestion of fluids.

The fistulous tract was successfully resected and reinforced by mediastinal pleura.

Broncholithiasis was confirmed by lithoptysis as the cause of previous esophagobronchial fistula.

I. 서 론

기관지 결석증은 기관지내 혹은 기관지와 연결된 폐 공동 내에 결석이 존재하는 상태로 정의되는 매우 드문 질환으로 이미 오래전에 Aristotle등에 의해 “돌을 벨아내는 질환(Splitting of stones)”으로 기술되었다¹⁾.

기관지 결석증의 원인 질환으로는 결핵이나 Histoplasmosis가 가장 흔하고 그외 Coccidioides, Cryptococcus, Actinomyces, Nocardia 등이 거론되고 있으나²⁾ 정확한 기전은 알려져 있지 않다.

본 전북대학교 의과대학 흉부외과학교실에서는 기관지 결석증을 동반한 식도기관지루 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례

환자 : 김○식, 59세, 남자.

주소 : 연하후 발작적인 기침.

병력 : 본 환자는 약 10일 전부터 갑자기 연하후 발작적인 기침이 발생하였고, 특히 물이나 음료수와 같은 유동식을 먹으면 더욱 증상이 심하여 전혀 식사를 할 수 없었다.

과거력 : 3년전 항결핵제를 1년간 복용하였으나, 그 외 흉부외상이나 부식성 약물복용 등은 없었다.

이학적 소견 : 전신상태는 비교적 양호하였으며 흉

*전북대학교 의과대학 흉부외과학교실

*Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery,
College of Medicine, Chonbuk National University

부청진상 숨소리는 기침었으나 수포성 잡음은 들을 수 없었다.

검사소견 : 혈액검사 소견에서 백혈구의 증가는 보이지 않았고, 간기능, 소변, 전해질, 혈액응고, 심진도, 폐기능, 객담검사 등도 모두 정상이었다.

방사선 검사소견 : 단순흉부X선 사진에서 양측의 폐문과 기관 주위에 다발성 임파절 석회화가 보였고, 좌측 늑막에 경도의 섭유화가 있었다(그림 1,2). 식도 조영검사에서는 중부식도와 좌측 주기관지 사이에 식도기관지루를 확인할 수 있었다(그림 3).

내시경 소견 : 식도 내시경상에서 절차로부터 29cm

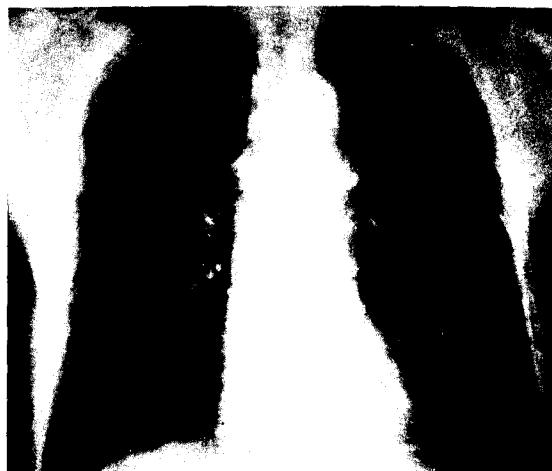


그림 1. 수술전 흉부 정면사진



그림 2. 수술전 흉부 측면사진



그림 3. 수술전 식도조영술(좌측 주기관지와 식도 사이에 식도-기관지루가 보이고 있다)

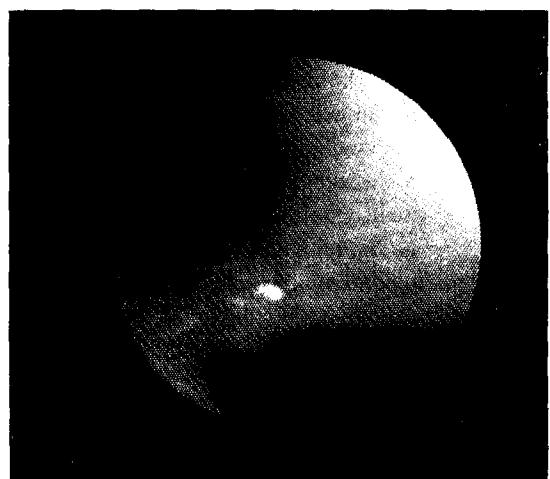


그림 4. 수술전 식도 내시경 소견(누공이 식도축 개구부위가 보인다)

부위에 있는 기관지로 통하는 개구부위를 확인하였으나 다른 부위는 정상소견을 보였고(그림 4), 기관지경 검사에서는 좌측 주기관지 중간 부위에서 식도로 통하는 개구부위를 확인할 수 있었고 그외 좌측 기관지에 경도의 염증성 변화를 볼 수 있었다(그림 5).

수술방법 및 소견 : Levin관을 식도에 넣은 후 전신 마취하에 좌측 후측방개흉술을 실시하여 식도를 노출시켰다. 흉강내에는 중등도의 유착이 있었고, 폐문 주위에는 석회화된 임파절들이 주위조직과 심하게 유착

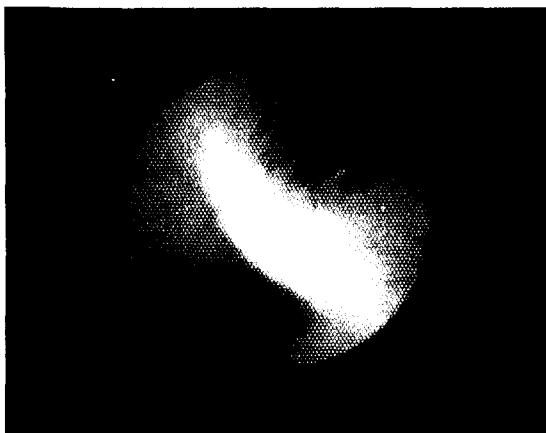


그림 5. 수술전 기관지경 소견(누공의 기관지축 개구부위가 보인다)



그림 6. 절제해낸 식도-기관지루의 병리학적 소견

되어 박리하는데 어려움이 있었다. 유착을 박리한 후 식도기관지루를 확인하고 그 중간부위를 절단하여 양 측 누공을 봉합한 다음 종격동측 흄막으로 봉합부위를 덮어 주었다. 병리조직학적 소견상 누관은 간질성 세포조직으로 되어 있었고 점막층이나 균육층은 볼 수 없었으며 염증세포의 침윤만을 확인할 수 있었다(그림 6).

수술후 경과 : 수술후 경과는 양호하였고, 7일째 식도조영술을 시행하여 누출이 없음을 확인한 후 Levin관을 빼고 음식물을 경구로 투여하였으며 수술후 13일째 건강하게 퇴원하였다. 환자는 퇴원 2개월부터 혈담을 동반한 기침과 흉통을 호소하였고, 5개월후에는 각혈을 동반한 심한 기침이 있으면서 둘이 튀어나왔다(그림 7). 둘이 튀어나온지 1주일후 시행한 기관지경 검사에서 과거에 분리봉합한 누공의 개구부 직하방에서 용기된 점막층과 육아조직을 발견할 수 있었다. 현

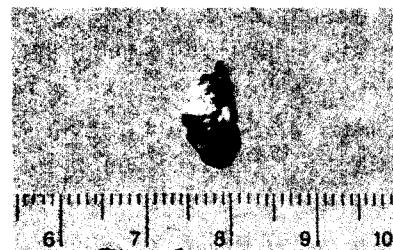


그림 7. 심한 각혈을 동반한 기침시에 튀어나온 기관지 결석의 육안적 소견

재 환자는 특별한 문제없이 잘 지내고 있다.

III. 고 안

기관지 결석증은 Aristotle에 의해 처음 기술되었고³⁾, 결핵이나 Histoplasmosis에 의한 종격동 또는 폐문부 임파절의 석회화와 관련이 있다고 알려져 있으나 최근의 문헌들에서 기관지 결석증에 대한 언급은 매우 드문 설정이다.

기관지 결석증의 원인에 대해서는 아직 정확히 알려져 있지 않고 있지만 Faber 등¹⁾은 1) 종격동 또는 폐문부 임파절의 석회화, 2) 기관지내로 흡입된 이물질의 석회화, 3) 나이가 들면서 기관지벽에 칼슘 침착, 4) Silicosis 등 4가지를 주장했다. 그러나 대부분의 학자들은 기관지 결석증의 생성기전에 대해 기관지 주위의 임파절에서 석회화된 결석이 심장박동이나 호흡운동에 따라 주위 조직으로 이동되어 조직을 침식하는데 이때 기관지 벽을 뚫고 들어가서 기관지 결석증이 생긴다고 주장하고 있다^{4,5,6,7,8)}. 기관지 주위 임파절의 석회화를 초래하는 질환으로는 결핵이나 Histoplasmosis가 가장 흔하고 그외 Actinomycosis, Coccidioidomycosis, Cryptococcosis 등도 보고되고 있다^{4,7,9,10,11,12)}.

기관지 결석증의 정확한 발생빈도는 아직 밝혀지지 않았고, 다만 매우 드문 질환으로만 알려져 있는데, 육아종성 폐질환의 발생빈도와 관련이 있다고 한다⁹⁾. 호발연령은 50대이나 다양한 연령층에서 발생이 보고되고 있고^{1,3,4,5,6)}, 남여의 성비는 일반적으로 비슷하다고 알려져 있으나 Trastek 등⁶⁾과 Dixon 등⁴⁾은 각각 1.5 : 1과 1.7 : 1로 남자에서 호발한다고 했고, Faber 등¹⁾과 Cole 등³⁾은 각각 1 : 1.4와 1 : 2의 비율로 여자에서 호발한다고 보고하고 있다.

기관지 결석증의 화학조성은 인체의 골성분과 매우 비슷하여 85%~90%가 인산칼슘이고 10%~15%가 탄산칼슘이라고 보고되고 있으나^{8,13)}, 국내의 김¹⁴⁾은 인(phosphate) 성분은 발견되지 않았다고 보고했다.

기관지 결석증의 증상은 기관지의 침식(erosion)이나 압박과 관계가 있는데 기침과 각혈이 가장 흔하고 그외 폐렴에 의한 발열과 객담, 기관지천식 증세, 기침시 결석의 배출(lithoptysis), 호흡곤란, 흉통 등이 발생할 수 있다^{1,3,4,5,6)}. 이들중에서 기관지 결석을 뱉어내는것(lithoptysis)은 확진할 수 있는 증상으로서 그 빈도는 5%~34%정도로 보고되고 있다^{1,3,4,5,6)}.

진단은 환자의 증상이나 흉부단순촬영, 단층촬영, 기관지경 검사 등에 의해 이루어 질 수 있는데, 식도 기관지루가 합병된 경우에는 식도나 기관지조영검사가 진단에 도움을 줄 수 있다^{1,3,4)}. 기관지경 검사에서는 육아조직이나 기관지 협착 등이 관찰될 수 있고, 때로 기관지벽을 침식하는 석회화된 임파절 혹은 직접 결석이 관찰되기도 하는데¹⁾, Dixon등⁴⁾과 Arrigoni등⁵⁾은 기관지경 검사상 각각 44%와 28%에서 직접 결석을 확인할 수 있었다고 보고했다. 그러나 결석을 뱉어내거나, 기관지경 검사상 결석이 확인된 경우와 같이 확진할 수 있는 경우 외에도 단순흉부촬영과 단층촬영 등에서 폐문부와 종격동 임파절의 석회화가 보이면 기관지 결석증을 의심할 수 있다⁶⁾. 진단시 주의해야 할 사항으로는 폐암과의 감별로서 기관지경 검사에 의한 기관지 생검과 기관지 brushing에 의한 세포검사를 꼭 시행해야 한다⁶⁾.

기관지 결석증에서는 자주 재발하는 폐렴, 각혈, 식도기관지루, 기관대동맥루 등이 합병될 수 있는데, 식도기관지루는 만성 총격동 임파절염에 따른 식도 주위의 염증의 결과인 견인성 식도 계실에 대한 석회화된 임파절의 미란때문에 발생한다고 생각하고 있으나 정확한 기전은 아직 확실하지 않다. 식도기관지루의 발생빈도는 매우 드물어 Trastek등⁶⁾과 Dixon등⁴⁾의 보고에서는 식도기관지루가 발생된 경우가 없었고, Arrigoni등⁵⁾과 Faber등¹⁾의 보고에서는 각각 253례와 43례의 환자에서 식도기관지루가 합병된 경우는 2례와 5례였다. 기관지 결석증에서 심한 각혈로 인해 생명이 위독하게 되는 경우도 때로 발생하는데, Bollengier등¹⁵⁾은 기관지 결석증에서 발생한 기관대동맥루 1례를 보고하였고, Brantigan¹⁶⁾은 기관지경에 의한 결석 제거시에도 심한 각혈이 발생할 수 있다고 하였다.

기관지 결석증의 치료에는 기관지경에 의한 결석의 제거와 수술적 가勁로 구분할 수 있는데, 결석의 크기와 위치 그리고 결석에 의한 합병증 유무에 따라 달라질 수 있고, 만약 의의있는 증상이나 합병증이 없는 경우 특별한 치료없이 관찰하는 것이 최상의 선택이 될 수도 있다⁴⁾. 기관지경에 의해 결석을 제거하는 방법에 대한 논란은 아직도 계속되고 있는데 Brantigan¹⁶⁾은 기관지 결석을 기관지경으로 제거하지 말라고 주장한 반면, Cole등³⁾은 합병증이 발생하지 않은 경우라면 기관지경에 의한 결석의 제거를 시도해봐야 한다고 했고, 기관지경에 의한 성공적인 결석의 제거 사례들도 여러 문헌에서 보고되고 있다. Moersch등¹⁷⁾은 87례의 환자중 33례에서 기관지경에 의해 결석을 제거했고, Trastek등⁶⁾은 전체 52례의 환자중 12례에서 기관지경에 의한 결석의 제거를 시도했고 그중 8례에서 성공적으로 결석을 제거했다고 보고했다. 그러나 기관지경에 의한 결석의 제거는 때로 심각한 합병증을 초래할 수도 있는데, Groves등⁷⁾의 경우 27례의 환자 중 2례에서 기관지경에 의한 제거를 시도했는데 2례 모두 출혈 혹은 기관지 파열이 발생하였고, Faber등¹⁾의 경우도 43례의 환자중 2례에서 기관지경에 의한 결석 제거를 시도하였으나 1례에서 식도기관지루가 발생하였다.

기관지 결석증에서 수술적 가勁의 적응에 대해 Faber등¹⁾은 1) 식도와 기관지 사이의 누공이 존재하는 경우, 2) 지속적이고 재발하는 각혈, 3) 폐폐사(Pulmonary suppuration)가 생긴 경우, 4) 암이 의심되는 경우 등을 들고있다. 수술적 가勁에는 폐구역 절제술, 폐엽 절제술, 전폐 절제술, 단순 임파절 절제술, 식도기관지루 제거, 기관지 성형술, Sleeve lobectomy 등 다양한 방법이 보고되고 있으나 Faber등¹⁾은 폐구역 절제술, Arrigoni등⁵⁾은 폐엽 절제술이 가장 많이 시행되었다고 보고하고 있다. 그러나 대부분의 문헌에서는 손상되지 않은 폐실질이 보존될 수 있는 방법을 선택해야 한다고 주장하고 있다^{1,3,6)}.

기관지 결석증에 대한 수술은 대체로 합병증이 매우 적고 사망율과 재발율도 무시할 수 있는 정도라고 보고되어 있지만^{1,3,6)}, 때로 폐문 주위의 심한 섬유화 유착이나 석회화된 임파절과 주위 조직의 유착으로 인하여 폐동맥이나 폐정맥을 박리하는 동안 심한 출혈이 있을 수 있으므로 주폐동맥과 폐정맥을 먼저 박리하여 위험한 상황에 미리 대비해야 한다¹⁾. 기관지 성형술이

나 Sleeve lobectomy를 시행하는 경우에는 식도기관지루의 경우와 같이 봉합 부위를 흉막 flap으로 감싸주는 것이 재발을 방지하는데 도움을 준다고 한다¹⁾.

IV. 결 론

본 전북대학교 의과대학 흉부외과학교실에서는 최근 성인에서 발견된 기관지 결석증을 동반한 식도기관지루 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Faber LP, Jensik RJ, Chawla SK, Kittle CF : *The surgical implication of broncholithiasis*. *J Thorac Cardiovasc Surg* 70 : 779 - 789, 1975
2. Kelley WA : *Broncholithiasis*. *Postgrad Med* 66 : 81 - 90, 1979
3. Cole FH, Cole FH Jr, Khandekar A, Watson DC : *Management of broncholithiasis*. *Ann Thorac Surg* 42 : 255 - 257, 1986
4. Dixon GF, Donnerberg RL, Schonfeld SA, Whitcomb ME : *Clinical commentary. Advances in diagnosis and treatment of broncholithiasis*. *Am Rev Respir Dis* 129 : 1028 - 1030, 1984
5. Arrigoni MG, Bernatz PE, Donoghue FE : *Broncholithiasis*. *J Thorac Cardiovasc Surg* 62 : 231 - 237, 1971
6. Trastek VF, Pairolo PC, Ceithaml EL, Pie-
hler JM, Payne WS, Bernatz PE : *Surgical management of broncholithiasis*. *J Thorac Cardiovasc Surg* 90 : 842 - 848, 1985
7. Groves LK, Effler DB : *Broncholithiasis : A review of twenty-seven cases*. *Am Rev Respir Dis* 73 : 19 - 30, 1956
8. Schmidt HW, Clagett OT, McDonald JR : *Broncholithiasis*. *J Thorac Cardiovasc Surg* 19 : 226 - 245, 1950
9. Baum GL, Bernstein IL, Schwarz J : *Broncholithiasis produced by histoplasmosis*. *Am Rev Respir Dis* 77 : 162 - 167, 1958
10. Uragoda CG : *Broncholithiasis secondary to intrapleural calcification*. *Br Med J* 2 : 1635 - 1636, 1966
11. Weed LA, Andersen HA : *Etiology of broncholithiasis*. *Dis Chest* 37 : 270 - 277, 1960
12. Bech K : *Broncholithiasis*. *Nord Med* 30 : 810 - 812, 1946
13. Well HG : *Calcification and ossification*. *Arch Intern Med* 7 : 721 - 753, 1911
14. 김주현 : 기관지 결석증의 임상적 연구. 대한흉부외과학회지 19 : 259 - 264, 1986
15. Bollengier WE, Guernsey JM : *Broncholithiasis with aortotracheal fistula*. *J Thorac Cardiovasc Surg* 68 : 588, 1974
16. Brantigan CO : *Endoscopy for broncholith*. *JAMA* 240 : 1483, 1978
17. Moersch HJ, Schmidt HW : *Broncholithiasis*. *Ann Otol Rhinol Laryng* 68 : 548, 1959