

성인의 선천성 식도기관지루 3례 보고

이용훈* · 최필조** · 우종수**

=Abstract=

Congenital Bronchoesophageal Fistula in Adult -Report of Three Cases-

Yong Hoon Lee, M.D.*, Pill Jo Choi, M.D.**, Jong Soo Woo M.D.**

We have experienced three cases of congenital bronchoesophageal fistula which is rare and usually has an insidious clinical course. The patients included a thirty year old man and thirty six, thirty eight year old women respectively.

Bronchiectasis was found in all three cases, and bronchoesophageal fistula was found in one case preoperatively by esophagography and esophagoscopy, and other two cases operative field.

The fistula was found between right lower esophagus and right lower lobe in all cases and esophageal diverticulum in one case. So they belonged to type I (1 case), II (2 cases) of Braimbridge and Keith's classification of congenital bronchoesophageal fistula.

The fistulectomy was performed in all cases and concomitant lobectomy (2 cases) and bilobectomy (1 case) were done.

There were toxic hepatitis in two cases and prolonged air leakage in one case postoperatively. They were discharged on recovered state and have continued to do well.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1995;28:525-9)

Key words : 1. Bronchoesophageal fistula
2. Fistula

증례

증례 1

30세 남자환자로 94년 6월 교통사고 이후 점진적인 배뇨곤란으로 9월 본원 비뇨기과에 입원하여 요도협착으로 진단 받고 수술대기 중 선천성 식도기관지루가 진단되어 수술위해 전과되었다.

과거력상 유아기때부터 유동식 섭취후 발작적인 기침과 자주 반복되는 상기도 감염을 앓았으며 10년전 폐염으로 진단 입원 치료를 받았다.

전원당시 환자의 이학적 소견상 영양 상태는 양호하였으며 우하폐 부위의 호흡음이 감소되었으며 요도협착으로 인해 방광루 조성술 상태 (cystostomy)와 산재로 인한 우측 상지의 절단 상태 이외 특별한 이학적 소견이 없었다.

* 부산의료원 흉부외과

* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Pusan City Medical Center

** 동아대학교 의과대학 흉부외과학교실

** Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Dong-A University Hospital

논문접수번호: 941121 심사통과일: 1994년 12월 15일

통신저자: 이용훈, (602-103) 부산광역시 서구 동대신동 3가 1, Tel. (051) 247-6600, Fax. (051) 247-8753



Fig. 1. Preoperative chest P-A shows infiltration and cardiophrenic angle blunting in right lower lung field



Fig. 3. Preoperative esophagoscopy shows fistula orifice(↔)



Fig. 2. Preoperative chest C-T shows cystic bronchiectatic change in right lower lobe(↔)

일반 혈액 검사상 백혈구 증가($17250/\text{mm}^3$)와 뇨검사상 백혈구 과다, 세균뇨(WBC many, bacteriuria)가 있었다.

신기능 및 간기능 검사는 정상범위였다.

흉부단층 촬영상 우하엽 폐야의 침윤과 늑횡각의 둔화가 있었으며(Fig. 1) 흉부단층촬영상 우하엽의 확장성 변이를 보였다(Fig. 2). 식도경(Fig. 3)과 식도조영술(Fig. 4) 상 하부 우측 식도에서 우측 하폐엽 사이의 식도기관지루

가 발견되었다. 이상의 소견을 종합하여 식도기관지루 및 우하엽 기관지 확장증으로 진단하고 수술을 시행하였다.

전신마취하 우측 제 6늑간으로 절개하여 식도와 우측폐를 노출하였다. 중증도의 늑막유착과 엽간임파절의 증대가 보였으며 식도기관지루의 위치는 식도내시경상 절치로부터 35cm이었고 원위 식도에서 우하엽 기관지쪽으로 가는 누공을 확인할 수 있었는데 직경이 7~8mm 정도였고 점막의 염증성 변화는 없었다(Fig. 5)

누공은 단순절제후 Prolene 4-0를 사용 불연속 봉합하였고 식도측은 각각 이층 봉합하였으며 동시에 우하엽 절제술을 시행하였다.

병리검사상 누공은 편평상피로 피복되어 있었고 평활근층이 존재하고 있었으며(Fig. 6) 수술 일주일후 실시한 식도조영술상 식도기관지의 소실과 식도의 좋은 개방성(patency)를 볼수 있었으며(Fig. 7) 술후 약 3주간의 계속되는 기포 공기 누출(alveola leakage)이 있었으나 술후 4주째 자연 치유되었다. 문헌상의 Braimbridge & Keith 분류상 type II의 선천성 식도기관지루로 분류되었다.

환자는 요도협착의 수술등을 위해 비뇨기과로 전과되었다.

증례 2.

환자는 38세 여자로서 수년간의 각혈을 주소로 내원하



Fig. 4. Preoperative esophagogram shows bronchoesophageal fistula (⇔)



Fig. 5. Gross finding of extracted right lower lobe shows fistular tract. esophagus side (⇔) and bronchus side (↔)

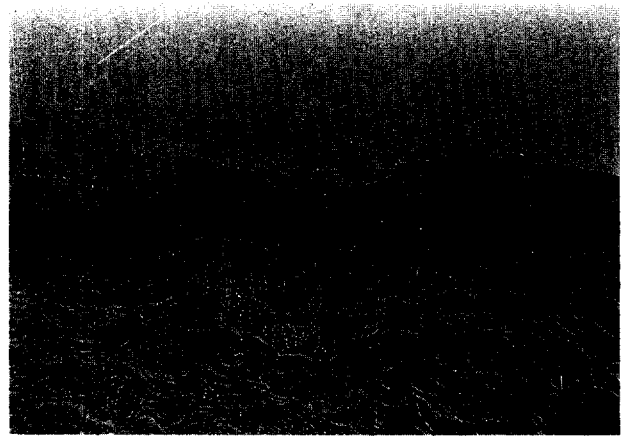


Fig. 6. Photograph of pathology showing stratified squamous lining epithelium and smooth muscle



Fig. 7. Postoperative esophagogram showing good esophageal patency

였다.

과거력상 어릴때부터 기침이 잦았으며 10년전 기관지 확장증 및 늑막염으로 진단 약물치료하였으며 유년기에

measles 감염력이 있었다.

이학적 소견상 우하폐엽의 호흡음이 감소되어 있었으며 그의 식도기관지루를 의심할만한 특별한 다른 이상은 없



Fig. 8. Preoperative bronchogram shows irregular cystic, sacular bronchiectatic changes in right lower lobe

었다.

간기능 및 신기능 검사, 일반 뇨 검사는 정상범위 였으며 심전도 검사도 정상이었다.

흉부단순 촬영상 우하폐엽의 기관지 폐혈관 음영 증대와 몽롱(blurring), 석회화 음영이 관찰되었으며 기관지 조영술상 우하엽의 불규칙한 낭상 원주상 기관지 확장 소견을 보였으며 폐기능 검사상 FEV1 1.8liter/sec(61.5%)로 나타났다. 이상의 소견을 종합하여 기관지 확장증으로 진단하여 수술하였다.

수술 소견상 우상엽의 막성 유착과 우하엽의 심한 늑막 비후와 유착이 있었으며 원추형(conical shape: 식도축 1cm, 기관지축 0.7cm)의 길이 약 2cm의 식도기관지루가 관찰되었다. 누공절제술과 우하엽절제술을 시행하였으며 이때 식도축 누공은 절제후 4~0 Prolene으로 불연속 봉합 후 식도 근육과 벽측 늑막을 5~0 Prolene으로 연속봉합하였다.

수술 3주후 실시한 식도조영술상 조영제의 누출이 보이지 않았으며 적출 우하엽의 병리조직검사에서 기관지 확장증과 기관지결석이 보고되었으며 Braimbridge and

Keith 분류상 type II로 분류된다.

술후 간기능 수치(sGOT/GPT)가 상승되어 검사결과 독성 간염으로 진단받고 내과로 전과되어 치료후 회복되어 퇴원하였다.

증례 3.

40세 여자환자로 5년전부터 객담을 동반한 발작성 기침을 주소로 내원하였다. 과거력상 특이한 점은 없었다.

이학적 소견상 우측 하폐상 호흡음이 감소가 있었으며 그의 이학적 특이점은 없었으며 병리검사상 이상이 없었다. 단순 흉부 촬영상 우폐엽상 음영소실과 늑각의 둔화를 보였으며 기관지 촬영상 우하엽의 불규칙한 낭성 원주형 확장이 보였다(Fig. 8). 폐기능 검사상 FEV1 1.84 liter/sec(68.5%)로 나타났으며 심전도상 동성 서맥(50~60/min)이 있었다. 이상의 소견으로 기관지 확장증으로 진단하여 수술을 시행하였다.

수술시야에서 우하엽의 심한 유착이 있었으며 낭상의 식도계설 및 짧은 식도기관지루(약 2.5cm)가 발견되어 계설 절제술 시행하였으며 동시에 우측 중하엽 절제술을 시행하였다.

추출 우폐엽의 병리 검사상 염증반응과 기관지확장증의 소견이 보고되었으며 수술 4주후 실시한 식도조영술상 특이점이 없었다. Braimbridge and Keith 분류상 type I으로 분류되었다.

환자는 술후 간기능 수치(sGOT/GPT)가 높아져 내과로 전과되어 간염으로 진단, 치료후 퇴원하였다.

고찰

식도기관지루는 선천성 및 후천성으로 구분되며 전자는 식도폐쇄를 동반하여 영유아기에 증상이 나타나¹⁾ 즉시 교정술을 시행하여야 하는 경우와 식도폐쇄를 동반하지 않으며 증상이 대개 잠행성으로 늦게 나타나 성인이 되어서야 진단이 이루어지는 경우로²⁾ 나누어지며 후자는 대부분 악성 종양으로 인하여 발생되며⁶⁾ 감염, 외상 등의 원인으로, 증가추세에 있다고 한다.

선천성 및 후천성 식도기관지루의 병리조직학적 구별점은 점막상피가 편평상피이며 점막층과 근육층이 완전히 존재하고 주위 조직의 염증소견이나 신생물 림프선 유착이 없어야 하는 것으로³⁻⁶⁾ Braimbridge와 Keith는 선천성 식도기관지루를 다음 4가지로 분류하였는데^{2, 6)} 제 1형은 식도 계설이 존재하여 염증 등으로 천공되어 누관이 형성된 경우, 제 2형은 식도와 기관지 사이의 직선상의 짧은 통

로가 형성된 상태, 제3형은 폐엽내 낭종이 생겨 누관이 형성된 상태, 제4형은 누관이 폐 격리종의 폐엽과 연결된 경우로서 본 증례에서는 2례에서 모두 점막상피가 편평상피를 나타내었고 근육층이 존재하였으며 주위 조직으로부터의 염증이나 신생물로 인하여 누공이 형성되었다는 소견이 없으므로 하여 제2형의 선천성 식도기관지루로 분류하였으며 1례는 식도 계설이 존재하여 제1형으로 분류하였다.

식도폐쇄를 동반하지 않는 선천성 식도기관지루는 빈도상 식도기관루의 반수에 해당되며 비교적 드문 질환으로⁷⁾ 임상 증상발현이 대개 늦거나 성인이 되어 진단되는데 그 이유는 증상이 경하여 환자가 적응 병원을 늦게 방문하거나 누관내 얇은 막이 있다가 파열되거나 식도측에 점막주름이 막역할을 하다가 염증 등으로 소실 개구되거나 누관의 위치상 식도측이 높아 증상이 미미하게 되는 등의 여러 가설이 있다^{2, 6)}.

남녀간의 발생빈도는 거의 차이가 없으며⁵⁾ 증상은 유동식 섭취후 발작성 기침 각혈, 농성객담 등이며 유동식후 발작성 기침이 배와위 섭취시 기침 질식이 소실되고 (Ono's sign), 잦은 상기도 감염, 재발성 폐렴, 기관지 확장증, 폐농양 등이 잘 동반된다. 본례에서는 2례에서 발작성 기침을 1례에서는 각혈을 주증상으로 보였으며 모두 기관지 확장증을 동반하고 있었다.

진단은 대개 Barium을 이용한 식도조영술이며 기관지 손상을 줄이기 위하여 Hypaque, Lipiodol 등을 사용할 수 있으며 연속식도촬영술(Cineesophagography)가 가장 신뢰도가 높으며^{1, 4)} 그외 기관지 조영술이 도움이 되며 식도경으로 개구부를 확인할 수 있으며 특히 누공이 적을 경우 식도에서 주입한 mylene blue를 기관지경으로 발견할 수 있다. 본례에서는 1례에서 식도조영술로 진단되었으나 나머지 2례는 기관지 조영술 등으로 확진되지 않고 수술장

에서 알게되었다.

치료는 폐손상의 유무에 따라 폐절제를 결정하며 누관은 단순 절찰하거나 절제후 양측 절단면을 봉합하며 이때 식도측 절단면은 횡으로 2열 봉합하며 늑막으로 보강할 수 있다. 누공이 3mm이하시 내시경하 소작(Silver nitrate, Sodium hydroxide)하거나 자동봉합기로 단순봉합하기도 한다⁸⁾. 본 3례에서는 모두 누관의 단순절제후 양측 절단면을 봉합하였으며 식도 절단면은 2층 봉합하였다.

누공 주위 궤양 등 염증이 있을 경우 수술금지를 고려해야하며 수술후 봉합부위의 파열을 방지하기 위해 과도한 기침은 금하는 것이 좋다.

선천성 식도기관지루의 수술 결과는 대부분 좋으며 수술후 합병증은 드문 것으로 보고되고 있다.

참 고 문 헌

1. Acosty JL, Battersby JS. *Congenital tracheoesophageal fistula in adult*. Ann Thorac Surg 1974;17:51-7
2. Braimbridge M, Keith HI. *Oesophagobronchial fistula in chest*. Thorax 1965;20:226-33
3. 김주현. 성인에서 발견된 선천성 식도기관지루 수술치험(5례보고). 대흉외지 1983;16:381-5
4. 허 용, 강경훈, 박효숙 등. 성인의 선천성 식도기관지루 6례보고. 대흉외지 1988;21:594-600
5. Winston C, James LM. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. JAMA 1978;27:855
6. Chu W, and Millen JL. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. JAMA 1978; 239:855-6
7. Moersah JJ, Tinney WS. *Fistula between esophagus and tracheobronchial tree*. M Clin North America 1944;28:1001
8. Weissberg D, Kaufman M. *Bronchoesophageal fistula in adult: congenital aquired? (letter)*. J Thorac Cardiovasc Surg 1990;99:756-7